

# Chances and challenges of home-based bimanual training in children with unilateral cerebral palsy

Citation for published version (APA):

Beckers, L. W. M. E. (2019). *Chances and challenges of home-based bimanual training in children with unilateral cerebral palsy*. [Doctoral Thesis, Maastricht University]. Maastricht University. <https://doi.org/10.26481/dis.20190515lb>

## Document status and date:

Published: 01/01/2019

## DOI:

[10.26481/dis.20190515lb](https://doi.org/10.26481/dis.20190515lb)

## 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.

## SUMMARY



This dissertation presents the results of the research project COAD (“CO-creation At hanD: the road to independence”). The overall aim of this dissertation was to generate scientific knowledge on the chances and challenges of home-based bimanual training in children with unilateral cerebral palsy (uCP).

Given the promising advantages of upper extremity home-based programs in children with cerebral palsy (CP), a systematic review of the available literature on this topic was warranted. **Chapter 2** describes the protocol of a systematic review, of which the purpose was to investigate currently available home-based occupational therapy and physiotherapy programs regarding both their feasibility and effect. The systematic review was developed in accordance with the Preferred Reporting Items for Systematic Review and Meta-Analysis Protocols (PRISMA-P) 2015. Studies were included in which primary data were collected, participants were children aged < 18 years with any type of CP and the intervention of interest was a home-based occupational therapy or physiotherapy intervention. Comparators of interest were: no therapy, care as usual, center-based occupational therapy or physiotherapy, an alternative home-based program and a medical intervention. Studies were included that report either on feasibility (i.e., acceptability, demand, implementation, practicality, adaptation, expansion or integration) or on efficacy/effectiveness (i.e., child-related upper extremity outcomes within all International Classification of Functioning, Disability and Health levels or parent-related/caregiver-related outcomes on the psychological and social domain). Relevant studies were identified by searching the databases MEDLINE, EMBASE, CINAHL, PsycINFO, PEDro, OTSeeker and CPCI-S as well as the trial registers ICTRP and CENTRAL, the reference lists of included records and by circulating a bibliography of the included records to authors of included studies. There were no restrictions on language or year of publication. The search strategy consisted of terms related to the population and intervention. Data were extracted in duplicate using a digital data extraction form.

**Chapter 3** describes the results of this systematic review. A total of 47 studies were included, 22 feasibility studies (46.8%), 10 effectiveness studies (21.3%) and 15 studies that reported on both (31.9%). There was a large variation in child characteristics, whereas the vast majority of studies did not report any parent characteristics. The treatment approach was predominantly (modified) Constraint-Induced Movement Therapy (CIMT) (40%). The objectives of the intervention, the use of motor learning principles, and the coaching of parents were mostly unspecified. The training duration of the parent-delivered home-based training varied from 2 weeks to 6 months, and intensity from 70 minutes to 21 hours per week. The overall compliance to training (implementation) was moderate to high (62% to 96.1%). The majority of feasibility studies reported that parents found it easy to carry out the program and enjoyed seeing their children improve (acceptability). Conclusions about the effectiveness of home programs could not be made because of the large variability in study, patient and intervention characteristics, comparators and outcome measures used in the included studies.

Despite consensus on the value of home-based upper limb training in rehabilitation of children with uCP, no evidence-based best practice exists. Promoting compliance of children to adhere to an intensive program while keeping parental stress levels low is an important challenge when designing home-based training programs. Incorporating implicit motor learning principles emerged to be a promising method to resolve this challenge. In **chapter 4** we describe two

protocols for home-based bimanual training programs, one based on implicit motor learning principles and one based on explicit motor learning principles, for children with unilateral spastic CP aged 2 through 7 years. Children receive goal-oriented, task-specific bimanual training in their home environment from their parents for 3.5 h/week for 12 weeks according to an individualized program. Parents are intensively coached by a multidisciplinary team, consisting of a pediatric therapist and remedial educationalist. Both programs consist of a preparation phase (goal setting, introductory meetings with coaching professionals, design of individualized program, instruction of parents, home visit) and home-based training phase (training, video-recordings, registrations, and tele-coaching and home visits by the coaching team). The programs contrast with respect to the teaching strategy, i.e. how the parents support their child during training. In both programs parents provide their child with instructions and feedback that focus on the activity (i.e. task-oriented) or the result of the activity (i.e. result-oriented). However, in the explicit program parents are in addition instructed to give exact instructions and feedback on the motor performance of the bimanual activities, whereas in the implicit program the use of both hands and the appropriate motor performance of the activity are elicited via manipulation of the organization of the activities. With the protocols described, we aim to take a next step in the development of much needed evidence-based home-based training programs for children with uCP.

**Chapter 5** aims to conceptualize the phenomenon of therapy-related parental stress (TRPS) in parents of children with a physical disability. Three models related to parental stress were reviewed, i.e. general parental stress, burden of caregiving in parents of children with disabilities, and experiences of these parents with their child's therapy. We define TRPS as the subjective stress and subsequent changes of functioning and health experienced by a parent of a child with a physical disability in response to paramedical therapies (i.e. physical, occupational, and/or speech and language therapy). A theoretical model is proposed to describe the process of TRPS. Available questionnaires will most likely not be valid and responsive to capture the (changes in) stress parents experience related to therapy their child receives. This chapter provides a first definition of TRPS and a theoretical model to visualize the processes with regard to this topic. Empirical testing of the presented components and their coherence is needed to confirm or improve the model. A questionnaire that specifically measures the construct of TRPS is needed, along with evaluating TRPS in clinical practice and research.

**Chapter 6** provides the development of a Dutch translation of the Lifestyle Assessment Questionnaire for children with cerebral palsy (LAQ-CP), adapted for cross-cultural differences. The translation process consisted of 6 stages, following a guideline for cross-cultural adaptations including duplicate forward- and back-translations, expert group review, pilot-testing, and a process audit. Several adaptations to the questionnaire were required due to cross-cultural differences. As a result of the pilot-test, the layout was adapted to the desires of the users. The process auditor stated that the process had been comprehensive and valued the quality of the work. The project resulted in a Dutch translation of the LAQ-CP, adapted for cross-cultural differences. Validation of the translated questionnaire is required before use in clinical practice and research is recommended.

Many trials fail to include the targeted number of participants, causing scientific and ethical problems. The COAD trial of home-based training programs for children with uCP encountered recruitment problems, even though the parent-delivered home-based approach complies with recent health-care developments in the Netherlands. The project presented in **chapter 7** aimed to identify the barriers to recruitment in the COAD trial. This summative, multidimensional evaluation comprised informal conversational interviews in which stakeholders who had been involved reflected on the factors that impeded successful recruitment of participants into the COAD trial. Barriers to implementation and recruitment were clustered according to the constructs of the Consolidated Framework for Implementation Research (CFIR). Member checking validated the findings. A total of 41 stakeholders contributed to this evaluation. Barriers to the implementation of the HBTPs were identified within every domain of the CFIR (intervention characteristics, outer setting, inner setting, characteristics of individuals, and process). Parent-delivered home-based training was perceived as highly complex and in conflict with the pressures on and the needs of parents. Many parents preferred the alternative center-based group interventions. The involvement of a resonance group was highly valued, and opportunities for further enhancements emerged. Additionally, the importance of research consortia was emphasized. The appropriateness of the randomized controlled trial (RCT) as the study design was criticized. The findings of this study are summarized in a tool which provides a dozen directions for the successful recruitment of participants in pediatric rehabilitation research.

The aim of **chapter 8** is to explore the child- and parent-related effects of home-based bimanual training, adopting implicit or explicit motor learning, in children with uCP. We present a case series of 14 children (2–7 years) who completed the training. Five children performed the implicit and nine the explicit programs. Both included goal-oriented task-specific training for 3.5 hours/week for 12 weeks. A therapist and remedial educationalist coached parents in providing the training. Progression on bimanual goals and TRPS were of primary interest, measured with the Canadian Occupational Performance Measure (COPM) and by parental interviews. Data were collected at baseline (T0), halfway through the training (T1), at the end of training (T2), and after 12 weeks (T3). On the COPM performance scale, a clinically relevant change was seen in 50% (7/14), 86% (12/14), and 85% (11/13), and, on the satisfaction scale, in 43% (6/14), 64% (9/14), and 54% (7/14) of the children, at T1, T2, and T3, respectively. During the interviews, some parents indicated that they had experienced stress because of the intensity of the training. The secondary outcomes showed a tendency toward reduction of therapy-related and generic parental stress. It was concluded that the programs seem to positively affect children's bimanual performance and parental stress.

A process evaluation of the complex home-based bimanual training programs is crucial in order to draw accurate conclusions and provide recommendations for implementation in clinical practice and further research. **Chapter 9** describes the protocol of the process evaluation, which aimed to systematically assess fidelity of the home-based training programs, to examine the mechanisms that contributed to their effects on child-related and parent-related outcomes, and to explore the influence of contextual factors. A mixed methods embedded design was used

that emerged from a pragmatism paradigm. The qualitative strand involved a generic qualitative approach. The process evaluation components fidelity (quality), dose delivered (completeness), dose received (exposure and satisfaction), recruitment and context were investigated. Data collection included registration of attendance of therapists and remedial educationalists of a course regarding the home-based training programs; a questionnaire for the instructor to evaluate this course; a report form concerning the preparation phase to be completed by the therapist; registration and video analyses of the home-based training; interviews with parents and questionnaires filled out by the therapist and remedial educationalist regarding the process of training; and focus groups with therapists and remedial educationalists as well as registration of drop-out rates and reasons, to evaluate the overall home-based training programs. Inductive thematic analysis was used to analyze qualitative data. Qualitative and quantitative findings were merged through meta-inference.

**Chapter 10** provides the results of the process evaluation. The programs were not fully implemented as intended, but showed a good compliance of 79% of the intended training intensity. Overall, parents experienced the home-based training as positive. They were well able to provide the therapy. Activities of daily living were most easily practiced. For the children the program was demanding. Still, parents thought the program was worthwhile, as the bimannual performance of their child improved. Furthermore, altogether parents perceived the program as time-consuming. The extra pressure and time demands resulted in stress in few parents. Parents also experienced the 12-week program duration as too long. The combined coaching by the therapist and remedial educationalist was a highly appreciated component of the program. The instructional course for health care professionals, the instructional videos for parents, the task-analysis, the telephone appointments, and the home visits all positively contributed to the program. Nevertheless, the frequency of appointments was considered too high when the program progressed, conversations by telephone induced limitations for the coaching by the remedial educationalist, everyone involved was annoyed by the problems with the data sharing system, and parents disliked filing out the registration form.

CP research is dominated by group-based designs and the RCT has long been considered superior. Single-case experimental design (SCED) provides a rigorous alternative, respecting the heterogeneity of the population. The study described in **chapter 11** aimed to critically evaluate SCED studies performed within the population of children and adolescents with CP. A scoping review was performed. Studies were identified by searching electronic databases and included if they reported on a SCED study of children and/or adolescents up to 21 years with CP. Demographic, methodological, and statistical data were extracted. Articles were graded using the Risk of Bias in N-of-1 Trials (RoBiNT) Scale and evaluated for quality of reporting using the Consolidated Standards of Reporting Trials (CONSORT) extension for N-of-1 trials (CENT 2015). Comments regarding strengths and limitations were extracted and analyzed. Studies investigated the effects of a wide range of interventions on various outcomes. Most SCED types were adopted in multiple studies. All studies used visual inspection rather than visual analysis, often complemented with basic statistical descriptives. Risk of bias was high, particularly concerning internal validity. Many items of the CENT were insufficiently reported. Although the number of studies had increased over time, their risk of bias had not decreased. Several benefits and limitations of SCED were

identified. The conclusions were that SCED has potential within the context of personalized evidence-based medicine in children and adolescents with CP, provided that the quality of evidence from results is increased through reduction of risk of bias.

In **chapter 12** a general discussion of the main findings of the studies is provided. First, to describe the coherence between the results of the different studies, a logic model is presented, including assumptions, enabling and limiting resources, program activities, output, and outcomes. Second, we discuss a satellite project on the development of the Therapy-related Parental Stress Questionnaire (in Dutch: Vragenlijst Ouderlijke Stress als gevolg van Therapie van het kind (VOST)). Third, we argue for an iterative process in intervention development and evaluation in the complex pediatric rehabilitation setting. The SCED enables clinically-meaningful intervention research. Thereafter, we discuss some overarching methodological considerations: the mixed methods research approach, the children's involvement in the project, the outcome measures used, and an alternative statistical approach. In conclusion, our results do support the use of home-based bimanual training in clinical practice. Programs for children with uCP should include (1) a priori instruction of the healthcare professionals, (2) a task-analysis performed by the therapist, (3) exchange of video-recorded training sessions, and (4) individualized coaching of the parents by a therapist and remedial educationalist. More work is required to confirm our findings and to determine alternative home-based bimanual training programs. Special attention should be paid to the coaching process, the well-being of parents during the home-based training, the way children perceive the training, and the suitability of motor learning approaches for individual children, parents, and phases of learning. Additional studies will be needed to develop a complete picture of the construct of TRPS and to find the best way to measure it. Lastly, future studies on the methodological and statistical procedures of the SCED within pediatric rehabilitation are advocated.





## NEDERLANDSE SAMENVATTING (DUTCH SUMMARY)

Dit proefschrift beschrijft de resultaten van het COAD onderzoeksproject (“CO-creation At hand: the road to independence”). Het algehele doel van dit proefschrift was het genereren van wetenschappelijke kennis over de mogelijkheden en uitdagingen van bimanuele thuisstraining voor kinderen met een unilaterale Cerebrale Parese (uCP).

Gezien de veelbelovende voordelen van thuisinterventies voor de bovenste extremiteit voor kinderen met Cerebrale Parese (CP), is een systematische review van de beschikbare literatuur over dit onderwerp noodzakelijk. **Hoofdstuk 2** beschrijft het protocol van een systematische review, met als doel om de haalbaarheid en het effect van de momenteel beschikbare ergo- en fysiotherapeutische thuisinterventies te onderzoeken. De systematische review werd ontwikkeld in overeenstemming met de ‘Preferred Reporting Items for Systematic Review and Meta-Analysis Protocols (PRISMA-P) 2015’. Studies werden geïncludeerd indien primaire data werd verzameld, de deelnemers kinderen in de leeftijd < 18 jaar met om het even welk type van CP waren, en de interventie een ergo- of fysiotherapeutische thuisinterventie was. Ter vergelijking werden de volgende behandelingen meegenomen: geen therapie, gebruikelijke zorg, ergo- of fysiotherapie in het centrum, een alternatieve thuisinterventie en een medische interventie. Studies werden geïncludeerd indien gerapporteerd werd over haalbaarheid (dat wil zeggen aanvaardbaarheid, behoefte, implementatie, bruikbaarheid, aanpassing, uitbreiding of integratie) of over effectiviteit (dat wil zeggen kind-gerelateerde uitkomstmaten voor de bovenste extremiteit binnen alle levels van de ‘International Classification of Functioning, Disability and Health’ of ouder-/verzorger gerelateerde uitkomstmaten binnen het psychologische en sociale domein). Relevante studies werden geïdentificeerd door het doorzoeken van de databases MEDLINE, EMBASE, CINAHL, PsycINFO, Pedro, OTseeker en CPCI-S, evenals de trial registraties ICTRP en CENTRAL, de referentie-lijsten van opgenomen studies en door de verspreiding van een bibliografie van de geïncludeerde studies naar auteurs van opgenomen studies. Er waren geen beperkingen voor taal of publicatiejaar. De zoekstrategie bestond uit termen gerelateerd aan de populatie en interventie. Gegevens werden in tweevoud geëxtraheerd met behulp van een formulier voor digitale gegevensextractie.

**Hoofdstuk 3** beschrijft de resultaten van deze systematische review. In totaal werden 47 studies geïncludeerd: 22 haalbaarheidsstudies (46,8%), 10 effectiviteitsstudies (21,3%) en 15 studies die beide rapporteerden (31,9%). Er was een grote variatie in kind karakteristieken, terwijl de overgrote meerderheid van de onderzoeken geen karakteristieken van de ouders rapporteerde. De behandelvorm was overwegend (gemodificeerde) ‘Constraint-Induced Movement Therapy’ (CIMT) (40%). De doelstellingen van de interventie, het gebruik van motorische leerprincipes en de coaching van ouders waren meestal niet gespecificeerd. De trainingsduur van de door ouders geleverde thuisstraining varieerde van 2 weken tot 6 maanden en de intensiteit van 70 minuten tot 21 uur per week. De algehele therapietrouw van de training (implementatie) was matig tot hoog (62% tot 96,1%). De meeste haalbaarheidsstudies rapporteerden dat ouders het gemakkelijk vonden om het programma uit te voeren en het leuk vonden om hun kinderen vooruit te zien gaan (aanvaardbaarheid). Er konden geen conclusies over de effectiviteit van thuisprogramma’s worden getrokken vanwege de grote variabiliteit in studie-, patiënt- en interventie karakteristieken, interventies waarmee vergeleken werd en uitkomstmaten die werden gebruikt in de geselecteerde studies.

Ondanks consensus over de waarde van thuisinterventies voor de bovenste extremiteit in de revalidatie van kinderen met een uCP, bestaat er geen 'evidence-based best practice'. Het bevorderen van de therapietrouw van kinderen om zich aan een intensief programma te houden, terwijl het niveau van ouderlijke stress laag blijft, is een belangrijke uitdaging bij het ontwerpen van thuistrainingsprogramma's. Het integreren van impliciete motorische leerprincipes leek een veelbelovende methode om deze uitdaging op te lossen. In **hoofdstuk 4** beschrijven we twee protocollen voor bimanuele thuistrainingsprogramma's, één gebaseerd op impliciete motorische leerprincipes en één gebaseerd op expliciete motorische leerprincipes, voor kinderen met een unilaterale spastische CP van 2 tot 7 jaar. Kinderen krijgen doelgerichte, taak-specifieke, bimanuele training in hun thuisomgeving van hun ouders gedurende 3,5 uur per week gedurende 12 weken volgens een geïndividualiseerd programma. Ouders worden intensief gecoacht door een multidisciplinair team, bestaande uit een kindertherapeut en orthopedagoog. Beide programma's bestaan uit een voorbereidingsfase (doelen stellen, kennismakingsgesprekken met coaching professionals, ontwerpen van een geïndividualiseerd programma, instructie van ouders, huisbezoek) en een trainingsfase (training, video-opnamen, registraties als ook tele-coaching en huisbezoeken door het coaching team). De programma's contrasteren wat betreft de aanleerstrategie, dat wil zeggen hoe de ouders hun kind tijdens de training ondersteunen. In beide programma's geven ouders hun kind instructies en feedback die gericht zijn op de activiteit (dat wil zeggen taakgericht) of het resultaat van de activiteit (dat wil zeggen resultaatgericht). In het expliciete programma worden ouders echter ook geïnstrueerd om exacte instructies en feedback te geven over de motorische uitvoering van de bimanuele activiteiten, terwijl in het impliciete programma het gebruik van beide handen en de juiste motorische uitvoering van de activiteit wordt uitgelokt door het aanpassen van de organisatie van de activiteiten. Met de beschreven protocollen willen we een volgende stap zetten in de ontwikkeling van de hoognodige evidence-based thuistrainingsprogramma's voor kinderen met een uCP.

**Hoofdstuk 5** heeft als doel het fenomeen van therapie gerelateerde ouderlijke stress ('therapy-related parental stress' (TRPS)) bij ouders van kinderen met een lichamelijke beperking te conceptualiseren. Drie modellen gerelateerd aan ouderlijke stress worden beschouwd, namelijk algemene ouderlijke stress, belasting door zorgverlening bij ouders van kinderen met een beperking en ervaringen van deze ouders met de therapie van hun kind. We definiëren TRPS als de subjectieve stress en daaropvolgende veranderingen in functioneren en gezondheid ervaren door een ouder van een kind met een lichamelijke beperking als reactie op paramedische therapieën (fysiotherapie, ergotherapie en/of logopedie). Een theoretisch model wordt voorgesteld om het proces van TRPS te beschrijven. Beschikbare vragenlijsten zullen hoogstwaarschijnlijk niet valide en responsief zijn om de (veranderingen in) stressbeleving van ouders in verband met therapie die hun kind krijgt vast te leggen. Dit Hoofdstuk biedt een eerste definitie van TRPS en een theoretisch model om de processen met betrekking tot dit onderwerp te visualiseren. Empirisch testen van de gepresenteerde componenten en hun samenhang is nodig om het model te bevestigen of te verbeteren. Een vragenlijst die specifiek het construct van TRPS meet is nodig, evenals evaluatie van TRPS in de klinische praktijk en onderzoek.

**Hoofdstuk 6** beschrijft de ontwikkeling van een Nederlandse vertaling van de 'Lifestyle Assessment Questionnaire for children with cerebral palsy' (LAQ-CP), aangepast voor cross-culturele verschillen. Het vertaalproces bestond uit 6 fasen, volgens een richtlijn voor cross-culturele aanpassingen, namelijk dubbele 'forward- en back-vertalingen', beoordeling door een expertgroep, een pilot-test en een procesaudit. Er waren verschillende aanpassingen aan de vragenlijst nodig vanwege cross-culturele verschillen. Als resultaat van de pilottest werd de lay-out aangepast aan de wensen van de gebruikers. De procesauditeur verklaarde dat het proces uitgebreid was en waardeerde de kwaliteit van het werk. Het project resulteerde in een Nederlandse vertaling van de LAQ-CP, aangepast voor cross-culturele verschillen. Validatie van de vertaalde vragenlijst is vereist voor gebruik in de klinische praktijk en onderzoek wordt aanbevolen.

Veel onderzoeken slagen er niet in het beoogde aantal deelnemers te includeren, waardoor wetenschappelijke en ethische problemen ontstaan. De COAD-studie naar thuistrainingsprogramma's voor kinderen met een uCP ervoer wervingsproblemen, hoewel de door ouders verleende thuisbenadering voldoet aan de recente ontwikkelingen in de gezondheidszorg in Nederland. Het project gepresenteerd in **hoofdstuk 7** beoogde de belemmeringen voor de werving in de COAD-studie te identificeren. Deze summatieve, multidimensionale evaluatie bestond uit informele gespreksinterviews waarin betrokkenen reflecteerden op de factoren die succesvolle werving van deelnemers aan de COAD-studie belemmerden. Belemmeringen voor implementatie en werving werden geclusterd volgens de constructen van de 'Consolidated Framework for Implementation Research' (CFIR). Member checking valideerde de bevindingen. In totaal hebben 41 stakeholders bijgedragen aan de evaluatie. Belemmeringen voor de implementatie van de thuistrainingsprogramma's werden geïdentificeerd binnen elk domein van de CFIR (interventiekennmerken, externe setting, interne setting, kenmerken van individuen en proces). Door ouders verleende thuistraining werd als zeer complex ervaren en in strijd met de druk op en de behoeften van de ouders. Veel ouders gaven de voorkeur aan de alternatieve groepsinterventies in de centra. De betrokkenheid van een klankbordgroep werd zeer gewaardeerd en er kwamen kansen voor verdere verbeteringen naar voren. Daarnaast werd het belang van onderzoeksconsortia benadrukt. De geschiktheid van de 'randomized controlled trial' (RCT) als studiedesign werd bekritiseerd. De bevindingen van deze studie zijn samengevat in een tool die een dozijn aanwijzingen geeft voor de succesvolle werving van deelnemers voor onderzoek in de kinderrevalidatie.

Het doel van **hoofdstuk 8** is om de kind- en ouder-gerelateerde effecten van bimanuele thuistraining, waarbij impliciet of expliciet motorisch leren werd gebruikt, te onderzoeken bij kinderen met een uCP. We presenteren een case series van 14 kinderen (2–7 jaar) die de training voltooiden. Vijf kinderen voerden het impliciete en negen het expliciete programma uit. Beide omvatten doelgerichte, taakspecifieke training gedurende 3,5 uur/week gedurende 12 weken. Een therapeut en orthopedagoog coachten ouders bij het geven van de training. Vooruitgang op bimanuele doelen en TRPS waren van primair belang, gemeten met de 'Canadian Occupational Performance Measure' (COPM) en door ouderinterviews. Gegevens werden verzameld bij baselijn (T0) halverwege de training (T1), aan het einde van de training (T2) en na 12 weken (T3). Op de COPM 'performance schaal' werd een klinisch relevante verandering gezien in 50% (7/14), 86% (12/14) en 85% (11/13) en, op de 'satisfaction schaal', in 43% (6/14), 64% (9/14) en 54% (7/14) van de kinderen, respectievelijk op T1, T2 en T3. Tijdens de interviews gaven sommige ouders aan dat

ze stress hadden ervaren vanwege de intensiteit van de training. De secundaire uitkomstmaten toonden een neiging tot vermindering van therapie gerelateerde en generieke ouderlijke stress. Er werd geconcludeerd dat de programma's de bimanuele prestaties van kinderen en ouderlijke stress positief lijken te beïnvloeden.

Een procesevaluatie van de complexe bimanuele thuistrainingsprogramma's is cruciaal om accurate conclusies te trekken en aanbevelingen te doen voor implementatie in de klinische praktijk en verder onderzoek. **Hoofdstuk 9** beschrijft het protocol van de procesevaluatie, gericht op het systematisch beoordelen van de getrouwheid van de thuistrainingsprogramma's, het onderzoeken van de mechanismen die bijdragen aan hun effecten op kind-gerelateerde en ouder-gerelateerde uitkomsten en het onderzoeken van de invloed van contextuele factoren. Een 'mixed methods embedded design' werd gebruikt dat voortkomt uit het pragmatisme paradigma. Het kwalitatieve onderdeel behelsde een generieke kwalitatieve benadering. De procesevaluatiecomponenten getrouwheid (kwaliteit), geleverde dosis (volledigheid), ontvangen dosis (blootstelling en tevredenheid), werving en context werden onderzocht. De dataverzameling omvatte de registratie van de aanwezigheid van therapeuten en orthopedagogen bij een cursus met betrekking tot de thuistrainingsprogramma's; een vragenlijst voor de instructeur om deze cursus te evalueren; een rapportageformulier voor de therapeut met betrekking tot de voorbereidingsfase; registratie en video-analyses van de thuistraining; interviews met ouders en vragenlijsten die moesten worden ingevuld door de therapeut en orthopedagoog met betrekking tot het proces van training; en focusgroepen met therapeuten en orthopedagogen, evenals registratie van uitvalpercentages en -redenen, om de gehele thuistrainingsprogramma's te evalueren. Inductieve thematische analyse werd gebruikt om kwalitatieve gegevens te analyseren. Kwalitatieve en kwantitatieve bevindingen werden samengevoegd door middel van meta-inferentie.

**Hoofdstuk 10** presenteert de resultaten van de procesevaluatie. De programma's bleken niet volledig geïmplementeerd zoals bedoeld, maar vertoonden een goede therapietrouw van 79% van de beoogde trainingsintensiteit. Over het algemeen ervoeren ouders de thuistraining als positief. Ze waren goed in staat om de therapie te geven. Activiteiten uit het dagelijks leven werden het gemakkelijkst geoefend. Voor de kinderen was het programma veeleisend. Toch vonden ouders dat het programma de moeite waard was, omdat de bimanuele prestaties van hun kind verbeterden. Bovendien vonden ouders het programma in zijn geheel tijdrovend. De extra druk en tijdsinvestering resulteerden in stress bij enkele ouders. Ouders ervoeren ook de programmaduur van 12 weken als te lang. De gecombineerde coaching door de therapeut en orthopedagoog was een zeer gewaardeerd onderdeel van het programma. De instructiecursus voor zorgprofessionals, de instructievideo's voor ouders, de taakanalyse, de telefonische afspraken en de huisbezoeken droegen allemaal positief bij aan het programma. Desondanks werd de frequentie van de afspraken als te hoog beschouwd wanneer het programma vorderde, de gesprekken via de telefoon hadden beperkingen voor de coaching door de orthopedagoog, alle betrokkenen waren geïrriteerd door de problemen met het systeem voor het delen van gegevens en ouders vonden het niet prettig om het registratieformulier in te vullen.

CP-onderzoek wordt gedomineerd door op groepen gebaseerde designs en de RCT werd lang als superieur beschouwd. Het 'single-case experimenteel design' (SCED) biedt een rigoureuze alternatief, waarin de heterogeniteit van de populatie in acht wordt genomen. De studie beschre-

ven in **hoofdstuk 11** is gericht op het kritisch evalueren van SCED-onderzoeken uitgevoerd binnen de populatie van kinderen en adolescenten met CP. Er werd een scoping review uitgevoerd. Studies werden geïdentificeerd door elektronische databases te doorzoeken en geselecteerd als ze rapporteerden over een SCED-studie van kinderen en/of adolescenten tot 21 jaar met CP. Demografische, methodologische en statistische gegevens werden geëxtraheerd. Artikelen werden beoordeeld met behulp van de 'Risk of Bias in N-of-1 Trials (RoBiNT) Scale' en beoordeeld op kwaliteit van rapportage met behulp van de 'Consolidated Standards of Reporting Trials (CONSORT) extension for N-of-1 trials (CENT 2015)'. Opmerkingen met betrekking tot sterktes en beperkingen werden geëxtraheerd en geanalyseerd. Studies onderzochten de effecten van een breed scala aan interventies op verschillende uitkomstmaten. De meeste SCED-typen werden in meerdere onderzoeken toegepast. Alle studies gebruikten visuele inspectie in plaats van visuele analyse, vaak aangevuld met basale descriptieve statistiek. Het risico op bias was groot, vooral wat betreft interne validiteit. Veel items van de CENT waren onvoldoende gerapporteerd. Hoewel het aantal onderzoeken in de loop van de tijd was toegenomen, was hun risico op bias niet afgenomen. Verschillende voordelen en beperkingen van SCED werden geïdentificeerd. De conclusies waren dat SCED potentie heeft in de context van gepersonaliseerde, evidence-based geneeskunde bij kinderen en adolescenten met CP, op voorwaarde dat de kwaliteit van het bewijs van de resultaten wordt verhoogd door het risico op bias te verkleinen.

In **hoofdstuk 12** wordt een algemene discussie gegeven van de belangrijkste bevindingen van de onderzoeken. Ten eerste wordt een 'logic model' gepresenteerd om de samenhang tussen de resultaten van de verschillende studies te beschrijven. Dit behelst assumpties, bevorderende en beperkende bronnen, programma activiteiten, output en uitkomsten. Ten tweede beschrijven we een nevenproject over de ontwikkeling van de Vragenlijst Ouderlijke Stress als gevolg van Therapie van het kind (VOST). Ten derde pleiten we voor een iteratief proces voor de ontwikkeling en evaluatie van interventies in de complexe setting van de kinderrevalidatie. De SCED maakt klinisch relevant interventie-onderzoek mogelijk. Daarna bespreken we enkele overkoepelende methodologische overwegingen: de 'mixed methods' benadering van het onderzoek, de betrokkenheid van kinderen bij het project, de gebruikte uitkomstmaten en een alternatieve statistische benadering. Concluderend ondersteunen onze resultaten het gebruik van bimanuele thuistraining in de klinische praktijk. Programma's voor kinderen met uCP moeten omvatten: (1) a priori instructie van de zorgprofessionals, (2) een taakanalyse uitgevoerd door de therapeut, (3) uitwisseling van gefilmde trainingssessies en (4) geïndividualiseerde coaching van de ouders door een therapeut en orthopedagoog. Meer werk is noodzakelijk om onze bevindingen te bevestigen en om alternatieve bimanuele thuistrainingsprogramma's te ontwikkelen. Er moet speciale aandacht worden besteed aan het coachingsproces, het welzijn van de ouders tijdens de thuistraining, de manier waarop kinderen de training ervaren en de geschiktheid van motorische leerbenaderingen voor individuele kinderen, ouders en fases van leren. Er zijn aanvullende studies nodig om een volledig beeld te krijgen van de het construct van TRPS en om de beste manier te vinden om dit te meten. Tot slot worden toekomstige studies over de methodologische en statistische procedures van de SCED binnen de kinderrevalidatie bepleit.