

Blended therapy

Citation for published version (APA):

Baschung, P. (2021). *Blended therapy: an innovative approach to implement and promote adherence to physical exercise training in patients with Inflammatory Myopathy*. [Doctoral Thesis, Maastricht University]. ProefschriftMaken. <https://doi.org/10.26481/dis.20210617pb>

Document status and date:

Published: 01/01/2021

DOI:

[10.26481/dis.20210617pb](https://doi.org/10.26481/dis.20210617pb)

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

Take down policy

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

repository@maastrichtuniversity.nl

providing details and we will investigate your claim.

English summary

The term Inflammatory Myopathy (IM) refers to a group of rare heterogeneous neuromuscular diseases characterized by chronic proximal muscle inflammation and weakness. Although IM are relatively rare, the burden of disease for the affected patients is immense. The most prominent clinical features in all subcategories of IM are proximal and often symmetric muscle weakness and low muscle endurance, which progresses over a period of weeks or months. Both features result in significant disabilities. Patients often report increasing difficulties with the activities of daily living, such as getting up from a chair, going up- or downstairs, getting into a car, stepping onto a curb, lifting objects, washing hairs, brushing teeth, and gripping objects. In addition, patients may suffer from possible systemic issues, such as dysphagia, gastrointestinal, pulmonary and cardiac dysfunction, and in DM patients, skin involvement might further contribute to the disease morbidity. The symptoms of IM may negatively influence psychological health and well-being, resulting in significantly lower health-related quality-of-life scores compared to gender- and age-matched healthy individuals. Muscle weakness and low endurance in patients with IM is multifactorial. This is mainly a consequence of the chronic inflammation of the skeletal muscle itself, but microangiopathy with loss of capillaries might also play a role. Besides disease-intrinsic features, the tendency of patients with IM to avoid strenuous physical activity due to fear of disease exacerbation further enhances the physical deconditioning process. This vicious circle is unfortunately reinforced by the common catabolic side effect of steroids on muscle metabolism. In order to interrupt the vicious circle and rectify the deconditioning syndrome, physical exercise is crucial.

Since IM is a rare disease, there are only few experienced and appropriately trained physiotherapists available, most of them working in reference centres such as the University Hospital Zurich. As many patients with IM do not live near such a reference centre, they only have limited access due to long travel distance, and high travel costs. Therefore, for patients from the USZ who are not capable of attending a supervised exercise program twice a week, a home-based exercise program is provided. Unfortunately, such a home program often results in problems with sustained adherence due to the lacking supervision and personal contact. Blended therapy, the combination of telerehabilitation using telecommunication technologies and face-to-face sessions, might be a potential therapy option. Thus, the overall aim of this

project was to evaluate the feasibility of a blended therapy approach, combining a newly developed interactive tablet-based exercise app with face-to-face physiotherapy sessions in patients with IM., Several steps were necessary to achieve this aim, and each of these steps is described in separate chapters in this thesis.

The project started with a systematic review of the relevance of applying exercise training principles, reporting the FITT components (FITT: frequency, intensity, type and time) in the training prescription as well as adhering to the training (**Chapter 2: The relevance of applying exercise training principles when designing therapeutic interventions for patients with inflammatory myopathies: a systematic review**). The systematic review revealed incomplete application of exercise training principles and insufficient reporting of the exercise prescribed and completed. From the 14 included studies, 93% reported specificity, 50% progression and overload, and 79% initial values. The training principles reversibility and diminishing returns were never reported. Interestingly, articles focusing on one training method alone (either strength or endurance training) reported more application of training principles compared to those with a combined intervention. Failure to apply the training principles may lead to under-dosed training and, as a consequence, the effect of the physical exercise intervention may be underestimated and the time allotted for therapy might not be used effectively and efficiently. FITT components were reported more consistently in the training prescription than in the result section. In the training prescription, frequency and type were described in 13 articles, time in 11 articles and intensity in 7 articles. In the results section, however, frequency was reported in 5 articles and type in 4 articles, while intensity and time never were mentioned. If the FITT components of physical exercise training and the adherence to these components are not explicitly reported, the intervention is not replicable in future studies and it is not possible to transfer the results to a clinical setting. The next step of this project entailed the development of an evidence-based exercise guideline for patients with IM (**Chapter 3: Entwicklung eines Trainingsleitfadens für Patienten mit entzündlicher Muskelerkrankung / Development of an Exercise Guideline for Patients with Myositis**). This exercise guideline was developed based on the results of a systematic review. As the study design, inclusion criteria, training modalities, and outcome measures of the 24 included studies were highly heterogeneous and the description of the study interventions were insufficient, the general training

guidelines of the American College of Sports Medicine and the clinical experience of specialist physiotherapists were consulted to complement missing information. Finally, an introductory part for general training principles and recommendations for resistance and endurance training for three different disease phases (early active, active and stable) were formulated. Patients in an early active phase (disease duration < three months) should start doing exercises to improve their cardiovascular fitness for 5-10 minutes at 50-60% of HR_{max} and perform progressive resistance training with low intensity and volume (1-3 series with 5-10 repetitions at 40-60% of 1 RM (Repetition Maximum)). In an active phase (disease duration >3 months, but unstable course of the disease), 15-30 minutes endurance training with 60-70% of HR_{max} and for progressive resistance 1-3 series with 8-15 repetitions at 40-60% of 1 RM is recommended. In a stable phase, volume and intensity of endurance and resistance training can be further increased up to 20-45 minutes with 70-85% HR_{max} for cardiovascular fitness and 2-3 series with 8-15 repetitions at 60-80% of 1RM for resistance training.

The next two studies dealt with measurement outcome instruments. The main aim of exercise studies in patients with IM is to increase the strength of affected muscle groups and to reduce disability caused by these muscle weaknesses. Treatment effects can only be verified if valid and reliable assessments are available. Therefore, we evaluated measurement properties of two strength tests and a questionnaire assessing limitations in the activities of daily living. Two practical and commonly used strength tests are the Manual Muscel Test (MMT) and the hand-held dynamometer (HHD). As both of them were insufficiently studied, we evaluated the reliability and concordance between these two tests (**Chapter 4: Manual muscle testing and hand-held dynamometry in people with inflammatory myopathy: An intra- and interrater reliability and validity study**). We tested the eight muscle groups included in the MMT8 (shoulder abduction, elbow flexion, wrist extension, neck flexion, hip abduction, hip extension, knee extension, and ankle extension) in both tests. The MMT results revealed high ceiling effects between 22% and 82% for all but one muscle group (hip extension). Intrarater reliability was substantial for shoulder abduction, elbow flexion, neck flexion, hip abduction, and hip extension (linear weighted Kappa varying from 0.61 to 0.69); moderate for wrist extension and knee extension (linear weighted Kappa varying from 0.49 to 0.53) and fair for ankle extension (linear weighted Kappa varying between 0.35 and 0.37). Interrater reliability was

moderate for neck flexion and hip abduction (linear weighted Kappa from 0.44 to 0.58); fair for shoulder abduction, wrist extension, and ankle extension (linear weighted Kappa varying from 0.20 to 0.35); and slight for knee extension (linear weighted Kappa of 0.08 and 0.18). The MMT total score showed excellent intra- and interrater reliability (ICC > 0.9) with a corresponding smallest detectable change (SDC) of 6.9% and 8.6%, respectively. The averaged peak force of two consecutive measurements assessed with the HHD revealed excellent intra- and interrater reliability (ICC between 0.75 and 0.97) for all muscle groups except for interrater reliability of ankle extension (0.61), which was fair to good. The corresponding SDC was between 23 and 65%. The correlation between the MMT and HHD was good for shoulder abduction, moderate for three muscle groups (hip abduction and elbow and neck flexion), and low for four muscle groups (wrist, knee, ankle and hip extension). These results raise doubt as to whether both tests measure the same construct (isometric maximum strength). In conclusion, only the MMT total score, but not the scores of single muscle groups, showed acceptable reliability and therefore MMT of single muscle groups should not be used to evaluate changes. In contrast, HHD could be recommended to evaluate isometric strength. If possible, the same tester should perform all tests and the average of at least two measurements should be applied. The only disease-specific patient-reported outcome measurement for patients with IM is the Myositis Activity Profile (MAP). This questionnaire includes 32 items that are divided in four subscales (movement activities, activities of moving around, personal care and hygiene, and domestic activities) and four single items (keeping in touch with close friends and relatives, avoiding overexertion during daily activities, being able to cope with work and/or housework to a satisfactory degree, and being able to do recreational activities of choice). As there was no validated German version, we translated the English MAP into German and validated this new version (**Chapter 5: Reliability and validity of the German version of the Myositis Activities Profile (MAP) in patients with inflammatory myopathy**). Our results revealed substantial reliability (weighted kappa coefficient between 0.65 and 0.77) for all MAP subscales and for three out of the four single items and moderate reliability (Weighted kappa coefficient: 0.57) for the single item “avoid overexertion”. In line with our hypothesis, the German MAP correlated highly with the Health Assessment Questionnaire (HAQ) and the physical component score of the SF36; moderately with the total scores of the Functional Index 2 (FI-2), the

HHD and the MMT8; and poorly with the mental component score of the SF36 and with pain. Three out of four subscales and two out of four single items achieved acceptable discriminative validity (area under the curve (AUC) between 0.72 and 0.79). Subscale “personal care” and single questions “social” and “avoid overexertion” indicated no acceptable discrimination (AUC between 0.65 and 0.69). Although the MAP showed good reliability and acceptable validity, there are some uncertainties concerning structure and scoring of this questionnaire. The MAP structure should be confirmed using a factor analysis, but the required sample of four to ten cases per item was far beyond our possibilities. A peculiarity of the scoring is that patients have to weight their difficulties against their needs when answering the questions. It is not known if each patient put more weight on difficulty or on their needs, and therefore it would be of considerable importance to further evaluate this scoring approach.

In the next study, we focused on the development of a tablet-based exercise app, including testing its usability and acceptance by end-users and exploring the therapists’ opinion on using this app in a clinical setting (**Chapter 6: Usability and acceptance of an interactive tablet-based exercise application: a mixed methods study**). The exercise app consists of two different parts: one for the therapists and for the trainees. In the former part, therapists can compile an individual exercise program for their trainees and monitor the performed exercises. In the latter part, the trainees can see their exercise program and record their performed exercises. The usability of the app was tested in two phases; after each phase the app was further improved based on the problems and comments of the participants. In both phases, five therapists and five trainees each performed different predefined tasks and were invited to verbalize their thoughts while performing these tasks. Effectiveness measured by task completion rate improved from 85% to 93% for the therapists, and from 73% to 90% for the patients from phase one to phase two. Therapists and trainees in both phases were satisfied with the app (70.5-85.5/100) and acceptance measured with the technology acceptance model was acceptable (101 to 120/140). As the app only will be used at the clinics if the therapists are truly convinced of its advantages, it is important to identify their opinions on the app. We therefore performed two focus group interviews; one with a group of team leaders and the other with a group of team members. In general, the team leaders and the team mem-

bers considered the app a useful therapy supplement. They especially appreciated its blended character, a distinguishing feature compared to other fitness apps, which lack a “professional” feedback function. The “blended therapy” setting also reduced their fear of being replaced by technical applications. The therapists also raised some concerns about using the app. Barriers were seen in its implementation in the clinic (data protection, uncertainties regarding payment of costs) and in the personal attitude of the therapists and patients - not all therapists and patients are technology-affine.

Finally, in the last study, we evaluated feasibility and potential impacts on muscle strength, muscle function, activity limitation, disability and health-related quality of life of a blended therapy approach, combining the app with face-to-face physiotherapy sessions in patients with IM (**Chapter 7: Feasibility of a blended therapy approach in patients with inflammatory myopathies**). The intervention consisted of three to four face-to-face therapy sessions (two sessions for compiling and introducing the individually tailored exercise program, and one to two follow-up sessions for checking the already performed exercises and adapting the training programme) and a 12-week home-based progressive resistance training which was supervised remotely. The individually tailored exercise programmes were based on recently published training guidelines and the therapists supervised each patient weekly by checking the training diary and by adapting or commenting on the training progress per remote access. The outcome of this study thus demonstrated that this blended therapy approach is feasible. The attrition rate of 7% was lower than the previously defined acceptance threshold of 10% and adherence of 84% was higher than the target adherence rate of at least 80%. Moreover, there was a high acceptance and satisfaction with this therapy approach. Nevertheless, the participants suggested some ideas for improving the app, such as “videos instead of photos”, “more space for writing messages”, “return button (to go back to the previous exercise)”, “a simple password to enter the programme”, “possibility of downloading the programme on the mobile phone and possibility of checking if the exercise is performed correctly (video feedback)”. When it comes to muscle strength and function, however, the results were inconsistent and revealed multiple levels of complexity. The MMT8 and FI-2 showed high ceiling effects, indicating that the patients achieved the highest possible score already at baseline, thus not giving the opportunity to detect any improvement even when the patients got stronger. Isometric peak force measured for patients with an adherence rate

of at least 80% showed a minor increase in six muscle groups (effect size between 0.04 and 0.42), but a decrease in two muscle groups (hip abduction and hip flexion). Higher effect sizes were revealed with the 30 second arm curl and chair stand (effect size between 0.52 and 0.88), where the participants increased the number of performed repetitions after the intervention by 1.5 and 2.3 repetitions, respectively. All three patient-reported outcomes that measured activity limitation, disability and health-related quality of life showed a tendency towards better health-related quality of life, less activity limitation and less disability. This tendency was seen despite floor effects and ceiling effects in different subscales of the MAP (used to assess activity limitation) and the HAQ (used to assess disability). In conclusion, this blended therapy approach using the newly developed tablet-based exercise app has proved to be feasible and the progressive resistance training revealed some positive impact on muscle performance and patient-reported outcomes. In addition, the study provides information that might be useful when selecting appropriate assessments and determining necessary sample sizes in future trials.

Deutsche Zusammenfassung

Der Begriff inflammatorische Myositiden (IM) bezieht sich auf eine Gruppe seltener heterogener neuromuskulärer Erkrankungen, die durch chronische proximale Muskelentzündung und -schwäche gekennzeichnet sind. Obwohl IM relativ selten sind, ist die Krankheitslast für die betroffenen Patient*innen immens. Die typischen klinischen Merkmale aller Subkategorien der IM sind proximale und oft symmetrische Muskelschwäche und eine geringe Muskelausdauer, welche über einen Zeitraum von Wochen bis Monaten fortschreiten. Beide Merkmale können zu erheblichen Behinderungen führen. Patient*innen berichten oft über zunehmende Schwierigkeiten bei Alltagsaktivitäten, wie z.B. von einem Stuhl aufstehen, Treppen hochgehen, in ein Auto steigen, auf ein Trottoir steigen, Gegenstände hochheben, Haare waschen, Zähne putzen und Objekte greifen. Darüber hinaus können Patient*innen unter möglichen systemischen Problemen wie Dysphagie, gastro-intestinalen, pulmonalen und kardialen Funktionsstörungen leiden. Bei Patient*innen mit einer Dermatomyositis kann die Hautbeteiligung die Krankheitslast zusätzlich verstärken. Die Symptome der IM können auch die psychische Gesundheit und das Wohlbefinden negativ beeinflussen. Dies führt zu einer signifikant schlechteren Lebensqualität im Vergleich zu nach Alter und Geschlecht gematchten gesunden Personen. Muskelschwäche und geringe Muskelausdauer bei Patient*innen mit IM sind multifaktoriell bedingt. Dies ist vor allem eine Folge der chronischen Entzündung der Skelettmuskulatur selbst, aber auch eine Mikroangiopathie mit einhergehendem Verlust der Kapillaren könnte eine Rolle spielen. Neben den krankheitsbedingten Folgen begünstigt die Tendenz von Patient*innen mit IM, anstrengende körperliche Aktivitäten aus Angst vor einer Verschlechterung der Krankheit zu vermeiden, die körperlichen Dekonditionierung zusätzlich. Dieser Teufelskreis wird leider durch die katabole Nebenwirkung von Steroiden auf den Muskelstoffwechsel verstärkt. Um diesen Teufelskreis zu durchbrechen und dem Dekonditionierungssyndrom entgegenzuwirken, ist körperliche Aktivität von entscheidender Bedeutung.

Da es sich bei der IM um eine seltene Krankheit handelt, gibt es nur wenige erfahrene und entsprechend ausgebildete Physiotherapeut*innen. Die meisten davon arbeiten in einem Referenzzentrum wie beispielsweise dem Universitätsspital Zürich (USZ). Viele Patient*innen mit IM wohnen jedoch nicht in der Nähe eines solchen Referenzzentrums und haben wegen der langen Anfahrtswege und der hohen Reisekosten nur begrenzten Zugang zu

diesen spezialisierten Zentren. Deshalb bekommen Patient*innen aus dem USZ, die nicht in der Lage sind, zweimal wöchentlich an einem betreuten Trainingsprogramm teilzunehmen, ein Übungsprogramm für zu Hause. Leider führt ein solches Heimprogramm aufgrund der mangelnden Kontrolle und des fehlenden persönlichen Kontakts oft zu Problemen bei der nachhaltigen Durchführung. Blended Therapie, eine Kombination von Telerehabilitation und persönlichen (Face-to-Face) Sitzungen, könnte eine mögliche Therapieoption sein. Daher bestand das Hauptziel unserer Arbeit darin, die Durchführbarkeit einer Blended Therapie bei Patient*innen mit IM zu evaluieren. Diese Blended Therapie kombiniert eine neu entwickelte interaktive, Tablet-basierte Trainingsapplikation mit persönlichen Physiotherapiesitzungen. Um dieses Ziel zu erreichen, waren mehrere Schritte notwendig. Jeder dieser Schritte wird in dieser Arbeit in separaten Kapiteln beschrieben.

Das Projekt begann mit einer systematischen Übersicht über die Anwendung von Trainingsprinzipien, die Beschreibung der verschiedenen Trainingskomponenten (Häufigkeit, Intensität, Art und Dauer) sowie die Adhärenz zum verordneten Training (**Kapitel 2: The relevance of applying exercise training principles when designing therapeutic interventions for patients with inflammatory myopathies: a systematic review**). Die systematische Übersicht zeigt auf, dass die Trainingsprinzipien zu wenig beachtet wurden und dass die Trainingskomponenten sowohl bei der Beschreibung des geplanten Trainings als auch bei den Angaben zur Adhärenz zum Training unvollständig beschrieben wurden. Von den 14 eingeschlossenen Studien machten 93% Angaben zur Spezifität, 50% zu Progression und trainingswirksamer Intensität und 79% zum Ausgangswert. Die Trainingsprinzipien Reversibilität und abnehmende Wirksamkeit wurden in keiner Studie beschrieben. Interessanterweise berichteten Artikel, die sich nur auf eine Trainingsmethode (entweder Kraft- oder Ausdauertraining) konzentrierten, über eine vermehrte Anwendung von Trainingsprinzipien im Vergleich zu denen mit einer kombinierten Intervention. Die Nichtbeachtung der Trainingsprinzipien kann zu einem unterdosierten Training führen, was zur Folge haben kann, dass die Wirkung des Trainings unterschätzt wird und die für die Therapie vorgesehene Zeit nicht effektiv und effizient genutzt wird. Trainingskomponenten wurden in der Trainingsbeschreibung konsistenter angegeben als im Ergebnisteil. In der Trainingsbeschreibung wurden Häufigkeit und Art des Trainings in 13 Artikeln, die Dauer in 11 Artikeln und die Intensität in 7 Artikeln beschrieben. Im Ergebnisteil wurde jedoch die Häufigkeit nur in 5

Artikeln und die Art des Trainings in 4 Artikeln beschrieben, während Intensität und Dauer nie erwähnt wurden. Wird das geplante sowie das effektive durchgeführte Trainingsprogramm nicht explizit beschrieben, ist die Intervention in zukünftigen Studien nicht replizierbar und es ist auch nicht möglich, die Ergebnisse in den klinischen Alltag zu übertragen.

Der nächste Schritt dieses Projekts beinhaltete die Entwicklung eines evidenzbasierten Trainingsleitfadens für Patient*innen mit entzündlicher Muskelerkrankung (**Kapitel 3: Entwicklung eines Trainingsleitfadens für Patienten mit entzündlicher Muskelerkrankung / Development of an Exercise Guideline for Patients with Myositis**). Dieser Trainingsleitfaden wurde auf der Grundlage der Ergebnisse einer systematischen Übersichtsarbeit entwickelt. Da das Studiendesign, die Einschlusskriterien, die Trainingsmodalitäten und die Outcomemessungen der 24 eingeschlossenen Studien sehr heterogen waren und die Beschreibung der Studieninterventionen unzureichend war, musste auf die allgemeinen Trainingsrichtlinien des American College of Sports Medicine und die klinische Erfahrung spezialisierter Physiotherapeut*innen zurückgegriffen werden, um fehlende Informationen zu ergänzen. Schließlich wurden ein Einführungsteil über die allgemeinen Trainingsprinzipien sowie Empfehlungen für ein Kraft- und Ausdauertraining für drei verschiedene Krankheitsphasen (früh aktiv, aktiv und stabil) beschrieben. Patient*innen in einer frühen aktiven Phase (Krankheitsdauer < drei Monate) sollten mit einem 5-10-minütigen Ausdauertraining mit einer Intensität zwischen 50-60% ihrer maximalen Herzfrequenz (HR_{max}) beginnen und ein progressives Krafttraining mit geringer Intensität und Umfang durchführen (1-3 Serien mit 5-10 Wiederholungen bei 40-60% des Ein-Wiederholungs-Maximums (repetition maximum: 1RM)). In einer aktiven Phase (Krankheitsdauer >3 Monate, aber instabiler Verlauf der Erkrankung) wird ein 15-30-minütiges Ausdauertraining mit 60-70% der HR_{max} und für das Krafttraining 1-3 Serien mit 8-15 Wiederholungen bei 40-60% des 1 RM empfohlen. In einer stabilen Phase können Umfang und Intensität des Ausdauertrainings auf 20-45 Minuten mit 70-85% der HR_{max} gesteigert und das Krafttraining kann auf 2-3 Serien mit 8-15 Wiederholungen bei 60-80% von 1 RM für das Krafttraining weiter erhöht werden.

Die nächsten beiden Studien befassten sich mit Instrumenten zur Messung der Ergebnisse. Das Hauptziel der Trainingsstudien bei Patient*innen mit IM ist es, die Kraft der betroffenen Muskelgruppen zu erhöhen und die

durch die Muskelschwäche verursachte Behinderung zu verringern. Behandlungseffekte können nur nachgewiesen werden, wenn valide und zuverlässige Assessments vorliegen. Deshalb haben wir die Messeigenschaften von zwei Krafttests und einem Fragebogen zur Beurteilung von Einschränkungen der Alltagsaktivitäten untersucht. Zwei einfache und häufig verwendete Krafttests sind der Manuelle Muskeltest (MMT) und die Handdynamometrie. Da beide Tests nicht ausreichend untersucht waren, evaluierten wir die Reliabilität und die Übereinstimmung zwischen diesen beiden Tests (**Kapitel 4: Manual muscle testing and hand-held dynamometry in people with inflammatory myopathy: An intra- and interrater reliability and validity study**). Wir testeten die Muskelgruppen welche im MMT8 enthalten sind (Schulterabduktion, Ellenbogenflexion, Handgelenksexension, Nackenflexion, Hüftabduktion, Hüftextension, Knieextension und Fussgelenkextension) mit beiden Krafttests. Die Ergebnisse des MMT zeigten Deckeneffekte zwischen 22% und 82% für alle Muskelgruppen mit Ausnahme der Hüftextension. Die intrarater Reliabilität war substantiell für die Schulterabduktion, Ellenbogenflexion, Nackenflexion, Hüftabduktion und Hüftextension (linear gewichtete Kappa-Werte zwischen 0,61 und 0,69); moderat für die Handgelenk- und Knieextension (linear gewichtete Kappa-Werte zwischen 0,49 und 0,53) und mittelmässig (fair) für die Fussgelenkextension (linear gewichtete Kappa-Werte zwischen 0,35 und 0,37). Die interrater Reliabilität war moderat für die Nackenflexion und Hüftabduktion (linear gewichtete Kappa-Werte zwischen 0,44 und 0,58); mittelmässig für die Schulterabduktion, Handgelenksexension und Fussgelenkextension (linear gewichtete Kappa zwischen 0,20 und 0,35); und gering für die Knieextension (linear gewichtete Kappa-Werte zwischen 0,08 und 0,18). Der MMT-Gesamtscore zeigte eine ausgezeichnete intra- und interrater Reliabilität ($ICC > 0,9$) mit einer entsprechenden kleinsten nachweisbaren Veränderung (smallest detectable change: SDC) von 6,9% bzw. 8,6%. Die durchschnittliche Maximalkraft von zwei aufeinanderfolgenden Messungen bei der Handdynamometrie, ergab eine ausgezeichnete intra- und interrater Reliabilität (ICC zwischen 0,75 und 0,97) für alle Muskelgruppen mit Ausnahme der interrater Reliabilität der Fussgelenkextensoren die mit einem ICC von 0,61 als «fair to good» beurteilt wurde. Die entsprechenden SDCs lagen zwischen 23-65%. Die Korrelation zwischen dem MMT und der Handdynamometrie war gut für die Schulterabduktion, moderat für drei Muskelgruppen (Hüftabduktion und Ellbogen- und Nackenflexion) und niedrig für vier Muskelgruppen (Handgelenk-, Knie-, Knöchel-

und Hüftextension). Diese Ergebnisse lassen Zweifel aufkommen, ob beide Tests das gleiche Konstrukt, nämlich die isometrische Maximalkraft, messen. Zusammenfassend lässt sich sagen, dass nur der MMT-Gesamtscore, nicht aber die Werte der einzelnen Muskelgruppen eine akzeptable Reliabilität aufweisen, weshalb der MMT einzelner Muskelgruppen nicht zur Beurteilung von Veränderungen herangezogen werden sollte. Im Gegensatz dazu kann die Handdynamometrie zur Messung der isometrischen Kraft empfohlen werden. Wenn möglich, sollten alle Tests von derselben Testperson durchgeführt werden und es sollte jeweils der Durchschnitt von mindestens zwei Messungen berechnet werden.

Die einzige krankheitsspezifische Patient Reported Outcome Messung (PROM) für Patient*innen mit IM ist das Myositis-Aktivitäten-Profil (MAP). Dieser Fragebogen umfasst 32 Items, die in vier Subskalen (Bewegungsaktivitäten, Aktivitäten der Fortbewegung, persönliche Körperpflege und Hygiene sowie Arbeiten im Haushalt) und vier einzelne Items (soziale Kontakte, Vermeidung von Überanstrengung, Arbeit/Schule/Haushalt, Erholung) unterteilt sind. Da es keine validierte deutsche Version gab, haben wir den englischen Fragebogen ins Deutsche übersetzt und diese neue Version validiert (**Kapitel 5: Reliability and validity of the German version of the Myositis Activities Profile (MAP) in patients with inflammatory myopathy**). Unsere Ergebnisse zeigten eine substantielle Reliabilität (gewichtete Kappa-Werte zwischen 0.65 und 0.77) für alle MAP-Subskalen und für drei der vier einzelnen Items und eine moderate Reliabilität (gewichteter Kappa-Wert: 0.57) für das Item "Vermeidung von Überanstrengung". In Übereinstimmung mit unserer Hypothese korrelierte der deutsche MAP hoch mit dem Gesamtscore des Fragebogens zum Gesundheitszustand (Health Assessment Questionnaire: HAQ) und der physischen Komponente der Lebensqualität (SF36); moderat mit der Muskelausdauer gemessen mit dem funktionellen Index-2 und der Maximalkraft gemessen mit der Handdynamometrie und des MMT8; und schlecht mit der mentalen Komponente des SF36 und mit Schmerzen. Drei von vier Subskalen und zwei von vier einzelnen Items erreichten eine akzeptable diskriminierende Validität (area under the curve (AUC) zwischen 0.72 und 0.79). Die Subskala "persönliche Körperpflege und Hygiene" und die Items "soziale Aktivitäten" und "Vermeidung von Überanstrengung" zeigten keine akzeptable diskriminierende Validität (AUC-Werte zwischen 0.65 und 0.69). Obwohl der MAP eine gute Reliabilität und akzeptable Validität zeigt, gibt es einige Unsicherheiten bezüglich Struktur

und Auswertung dieses Fragebogens. Die Struktur des MAP sollte mit Hilfe einer Faktorenanalyse bestätigt werden, jedoch lag die erforderliche Stichprobengröße von vier bis zehn Fällen pro Item weit über unseren Möglichkeiten. Eine Besonderheit des Scorings ist, dass Patient*innen bei der Beantwortung der Fragen ihre Schwierigkeiten gegen ihre Bedürfnisse abwägen müssen. Es ist nicht bekannt, ob Patient*innen mehr Gewicht auf die Schwierigkeiten oder auf ihre Bedürfnisse legen, und deshalb wäre es wichtig, diesen Scoring-Ansatz weiter zu evaluieren.

In der nächsten Studie konzentrierten wir uns auf die Entwicklung einer Tablet-basierten Trainingsapplikation, einschließlich der Prüfung ihrer Benutzerfreundlichkeit und Akzeptanz durch die Endbenutzer sowie der Ergründung der Ansicht von Therapeut*innen zur Verwendung dieser Applikation (App) in einem klinischen Umfeld (**Kapitel 6: Usability and acceptance of an interactive tablet-based exercise application: a mixed methods study**). Die App besteht aus zwei verschiedenen Teilen: einem für die Therapeut*innen und einem für die Trainierenden. Im ersten Teil können die Therapeut*innen ein individuelles Trainingsprogramm für ihre Trainierenden zusammenstellen und die durchgeführten Übungen überwachen. Im zweiten Teil können die Trainierenden ihr Trainingsprogramm einsehen und die durchgeführten Übungen rapportieren. Die Benutzerfreundlichkeit der App wurde in zwei Phasen getestet; nach jeder Phase wurde die App aufgrund der Probleme und Kommentare der Teilnehmenden weiter verbessert. In beiden Phasen führten fünf Therapeut*innen und fünf Trainierende jeweils verschiedene vordefinierte Aufgaben aus und wurden eingeladen, ihre Gedanken während der Ausführung dieser Aufgaben zu verbalisieren. Die Effektivität, gemessen an der prozentualen Erfüllung der Aufgaben, verbesserte sich von 85% auf 93% für die Therapeut*innen und von 73% auf 90% für die Trainierenden von Phase eins zu Phase zwei. In beiden Phasen waren sowohl Therapeut*innen als auch Trainierende mit der App zufrieden (70,5-85,5/100). Auch die Akzeptanz gemessen mit dem Technologie Akzeptanz Modell war ausreichend mit (101 bis 120/140). Da die App nur dann im klinischen Alltag eingesetzt wird, wenn Therapeut*innen wirklich von ihren Vorteilen überzeugt sind, ist es wichtig, ihre Meinung zu der App zu ermitteln. Wir führten daher zwei Fokusgruppeninterviews durch; eines mit einer Gruppe von Leitenden und das andere mit einer Gruppe von Teammitgliedern. Im Allgemeinen hielten die Leitenden und die Teammitglieder die App für eine nützliche Therapieergänzung. Sie schätzten besonders den Blended

Charakter, also die Kombination von online Beratungen und persönlichem Kontakt dieser App. Dies wurde als wichtiges Unterscheidungsmerkmal zu anderen Fitness-Apps, denen eine "professionelle" Feedback-Funktion fehlt, genannt. Der Blended Therapie Ansatz verringerte auch ihre Angst, durch technische Anwendungen ersetzt zu werden. Die Therapeut*innen äußerten auch einige Bedenken hinsichtlich der Verwendung der App. Barrieren wurden in der Umsetzung in der Klinik (Datenschutz, Unsicherheiten bezüglich der Kostenübernahme) und in der persönlichen Einstellung der Therapeut*innen und Patient*innen gesehen - nicht alle Therapeut*innen und Patient*innen sind technikaffin.

Schließlich haben wir in der letzten Studie die Machbarkeit einer Blended-Therapie, bei der die App mit Face-to-Face-Physiotherapiesitzungen bei Patient*innen mit IM kombiniert wird, evaluiert. Zusätzlich haben wir potenzielle Auswirkungen dieser Intervention auf Muskelkraft, Muskelfunktion, Aktivitätseinschränkung, Behinderung und gesundheitsbezogene Lebensqualität untersucht. (**Kapitel 7: Feasibility of a blended therapy approach in patients with inflammatory myopathies**). Die Intervention bestand aus drei bis vier persönlichen (Face-to-Face) Therapiesitzungen (zwei Sitzungen zur Zusammenstellung und Instruktion des persönlichen Trainingsprogramms und ein bis zwei Folgesitzungen zur Überprüfung und Anpassung der bereits durchgeführten Übungen) und einem 12-wöchigen progressiven Krafttraining welches zu Hause mit Unterstützung der App durchgeführt wurde. Die individuell zugeschnittenen Trainingsprogramme basierten auf dem kürzlich veröffentlichten Trainingsleitfaden. Während des gesamten Trainings betreuten die Therapeut*innen ihre Patient*innen über Distanz, indem sie wöchentlich das Trainingstagebuch und den Trainingsfortschritt überprüften und bei Bedarf die Übungen anpassten und/oder kommentierten. Das Ergebnis dieser Studie zeigte, dass dieser kombinierte Therapieansatz machbar ist. Die Ausfallquote lag mit 7% unter der zuvor definierten Akzeptanzschwelle von 10% und die Adhärenz mit 84% über der angestrebten Adhärenz Rate von mindestens 80%. Darüber hinaus gab es eine hohe Akzeptanz und Zufriedenheit mit diesem Therapieansatz. Dennoch schlugen die Teilnehmenden einige Ideen zur Verbesserung der App vor, wie z.B. "Videos statt Fotos", "mehr Platz zum Schreiben von Nachrichten", "Zurück-Button (um zur vorherigen Übung zurückzukehren)", "ein einfaches Passwort für den Zugang zum Programm", "die Möglichkeit, das Programm auf das Mobiltelefon herunterzuladen" und "die Möglichkeit, zu überprüfen ob die

Übung korrekt durchgeführt wird (Video-Feedback)". In Bezug auf Muskelkraft und -funktion waren die Ergebnisse inkonsistent und zeigten mehrere Komplexitätsstufen. Der MMT8 und der Funktionsindex 2 zeigten hohe Deckeneffekte, was bedeutet, dass die Patient*innen bereits zu Beginn der Studie die höchstmögliche Punktzahl erreichten, so dass keine Möglichkeit bestand, eine Verbesserung festzustellen, selbst wenn die Patient*innen besser wurden. Die bei Patient*innen mit einer Adhärenz Rate von mindestens 80% gemessene isometrische Maximalkraft zeigte eine geringfügige Zunahme in sechs Muskelgruppen (Effektgrösse zwischen 0.04 und 0.42), aber eine Abnahme in zwei Muskelgruppen (Hüftabduktion und Hüftbeugung). Höhere Effektgrößen zeigten sich beim 30-Sekunden-Armhebe und Stuhlstand Test (Effektgrösse zwischen 0.52 und 0.88). Bei diesen Tests erhöhten die Teilnehmenden die Anzahl der durchgeführten Wiederholungen nach der Intervention um 1.5 bzw. 2.3 Wiederholungen. Alle drei PROMs, bei denen Aktivitätseinschränkung, Behinderung und gesundheitsbezogene Lebensqualität gemessen wurden, zeigten eine Tendenz zu besserer gesundheitsbezogener Lebensqualität, weniger Aktivitätseinschränkung und weniger Behinderung. Diese Tendenz zeigte sich trotz Bodeneffekten und Deckeneffekten in verschiedenen Subskalen des MAP (zur Beurteilung der Aktivitätseinschränkung) und des HAQ (zur Beurteilung der Behinderung). Zusammenfassend lässt sich sagen, dass sich dieser gemischte Therapieansatz unter Verwendung der neu entwickelten Tablet-basierten Trainingsapplikation als durchführbar erwiesen hat und dass das progressive Widerstandstraining einige positive Auswirkungen auf die Muskelleistung und die von den Patient*innen berichteten Ergebnisse zeigte. Darüber hinaus liefert die Studie Informationen, die bei der Auswahl geeigneter Assessments und der Festlegung der erforderlichen Stichprobengrößen in künftigen Studien nützlich sein könnten.