

# Translating pain : assessing expressive pain behaviour of children with severe to profound intellectual disabilities

Citation for published version (APA):

van Dongen, K. A. J. (2004). *Translating pain : assessing expressive pain behaviour of children with severe to profound intellectual disabilities*. [Doctoral Thesis, Maastricht University]. Universiteit Maastricht. <https://doi.org/10.26481/dis.20041110kd>

**Document status and date:**

Published: 01/01/2004

**DOI:**

[10.26481/dis.20041110kd](https://doi.org/10.26481/dis.20041110kd)

**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 reports on the assessment of expressive pain behaviour in children with severe to profound intellectual disabilities, a topic in the area of paediatric pain that had rarely been investigated at the start of the research project. Over the years, valuable insight was gained into non-verbal expressions of pain in this specific population. In addition, this dissertation describes the development and psychometric evaluation of the instrument called Kids with Intellectual Disabilities Pain Assessment Instrument for Non-verbal Signals (KIDPAINS).

*Chapter 1*, the introduction to this dissertation, describes the rationale for the research project, and provides an overview of non-verbal expressions of pain derived from the literature on pain assessment in non-verbal paediatric populations at the start of the research project. The chapter also presents the facet design used to enable the comparison with the literature, based on seven dimensions of pain behaviour. Finally, the objectives and research questions underlying this dissertation are addressed.

*Chapter 2* describes the development of an item bank using qualitative research methods. Possible expressions of pain were collected by conducting unstructured interviews with health care professionals and parents of non-verbal children and young adults with severe to profound intellectual disabilities, and by observing these children and young adults during possibly painful situations. A comparison was made with the items derived from the literature described in Chapter 1. In all, 209 expressive pain behaviours were included in the item bank, some of which were consistent with those found in the literature, although a large number of additional expressions were identified as well. The findings indicated that expressive pain behaviour by children with severe to profound intellectual disabilities is only partially comparable with that of normally developing children. It was hypothesised that functional abilities and behavioural repertoires might influence the expression of pain in this population.

*Chapter 3* presents a cross-sectional study among nurses, investigating whether nurses caring for people with severe to profound intellectual disabilities regarded the items identified from the literature on pain assessment in this field as important. The study also included the newly identified items in Chapter 2, as well as signs of nociception. Data provided by nurses caring for people with severe intellectual disabilities were compared with those of nurses caring for people with profound intellectual disabilities. Results show that functional abilities and level of disability seem to influence the indicators nurses regard as important when diagnosing pain. In addition, nurses seemed to value all indicators as being important in diagnosing pain. Indicators referring to the context of behaviour as well as those referring to nociception were regarded as the most important ones.

The data of this study could not be used to reduce the number of items in the item bank developed in Chapter 2. In fact, the study identified two additional items for the item bank, raising the total number of expressions in the item bank to 211.

*Chapter 4* describes the prevalence of the remaining six dimensions and 145 expressions of pain retained in the item bank after it had been tested for content as well as face validity and interpretability (Chapters 2, 3, Appendix I), in various groups of children with severe to profound intellectual disabilities. Information about the frequency of occurrence of the expressions was collected by means of a questionnaire for parents. The study investigated whether the ability to express pain in language, as well as additional disabilities such as severe motor impairments and the presence of behavioural and emotional disturbances, influence the expression of pain. Results showed that children with severe multiple disabilities more often displayed items related to the Motor dimension (e.g. *High muscle tone, cramping*) and were less likely to express themselves by using behaviours related to the Injured Body Part dimension (e.g. *Rubbing injured body part*). Children with behavioural and emotional disturbances, by contrast, more often displayed changes in Social-Emotional and Vocal behaviour (e.g. *Self-biting* and *Stereotypical, repetitive sounds*). This study also showed that, although there are differences in the most frequently occurring items, the various groups of children also displayed similarities in terms of common expressions of pain. Items such as *Restless movements* and *Looking sad* frequently occurred in all children. In addition, *Crying loudly, intensely* was seen as the most important behavioural expression of pain by all parents. Based on the above findings, it was decided to limit the population for the development of the KIDPAINS instrument to non-verbal children with profound intellectual disabilities. Results of the questionnaire for parents were used to achieve an initial item selection for KIDPAINS.

*Chapter 5* describes the item selection process for KIDPAINS. The 114 items retained after reduction based on parents' reports (Appendix II) and a final check of the draft scale (Appendix I) were used to rate video recordings derived from observations of 52 children with profound intellectual disabilities at standardised episodes before and after a medical procedure under general anaesthesia. Two episodes were selected for presumed absence of pain (one day before the procedure within the hospital and one month after the procedure at home), while three episodes were selected for presumed presence of pain (30 minutes, 3 hours, 24 hours after extubation). One episode was selected as an intervention-specific moment presumed to reflect acute pain. The item selection process was applied separately for each time episode in order to cross-validate the selection process. Items were discarded based on frequencies of endorsement, internal consistency and Principal Components Analysis per dimension for each different time episode, as well as based on a negative coherence between components. This resulted in 42 items that were present in the item selections for at least one time episode. The facet design presented in Chapter 1 was partially abandoned based on these analyses. After subtraction of the 'normal' behaviour, as scored one day before and

one month after the procedure, from the behaviour at the moments of presumed pain, correlations with VAS were especially significant for the Facial, Vocal and Social-Emotional components identified by PCA. A comparison of the results for different time episodes identified a total of 11 of these possible components. Since clear convergent relationships with pain could not be identified for all components/ dimensions, further investigation of psychometric properties was needed.

*Chapter 6* describes the further psychometric evaluation of KIDPAINS for children with profound multiple disabilities. To this end, known groups were created based on previous VAS pain ratings in order to investigate construct validity. Four observers, including two nurses not familiar with the participating children, observed children who had previously been judged to be in pain, as well as those who had been judged to be pain free. The results of this study led to a final 18-item version of KIDPAINS, which was internally consistent and both between and within observers agreement was good. In addition, the reduced KIDPAINS instrument was found to be sensitive and specific both in differentiating between no-pain and pain situations and in differentiating between moderate and severe pain. A diagnostic cut-off point was established for moderate and severe pain. KIDPAINS showed strong convergent relations with other pain measures. However significant correlations with VAS stress were identified as well. This study also found that a scale developed for a broader population of children with severe to profound intellectual disabilities might lead to underestimation of pain in children with profound multiple disabilities.

*Chapter 7* presents a general discussion of the main findings of all studies presented in the dissertation. A distinction is made between the investigation of expressive pain behaviour as such and the development and psychometric evaluation of the pain assessment scale. Theoretical and methodological reflections on both topics are provided in the form of answers to critical questions. In addition, an update is provided of the literature available by the end of the present research project.

#### *Appendix I*

After an overall inventory of items had been made (Chapters 2 and 3), the resulting 211 items were further developed and an initial item selection process took place. This process is described in Appendix I. Four experts checked the items for interpretability, judging aspects like reading level, ambiguity, use of jargon and possible overlap. The remaining, adjusted items were used in a pilot study to test their applicability in a hospital environment, using a draft scale developed for this purpose. Based on the results, further adjustment of the items took place and several items were removed from the selection. Items were then further tested for content validity among health care professionals attending a symposium on people with intellectual disabilities. They were invited to describe to what extent an item was useful as an expression of pain (not, a little, definitely) and to provide additional comments on the items. Based on the remaining items, a questionnaire

for parents was developed including 145 questions (Chapter 4) relating to the 145 expressions included in the draft scale at that point. A final check of the draft scale led to the removal of another seven items, leaving 138 items in the scale.

*Appendix II* provides the statistical background information for the item selection process presented in Chapters 5 and 6. In this process, the item selection was narrowed down from 138 to 114 items, based on parents' reports. In addition, clinical data were used to reduce the number of items for KIDPAINS from 114 to 42 items. Finally, the study reported on in Chapter 6 selected 18 items for the final version of KIDPAINS.

## Samenvatting

Deze dissertatie gaat in op het beoordelen van pijngedrag bij kinderen met een (zeer) ernstige verstandelijke beperking. Een onderwerp dat, toen het in dit proefschrift beschreven onderzoek van start ging, nog nauwelijks enige aandacht had gekregen. In de loop der jaren is inzicht verkregen in non-verbale uitingen van pijn bij deze bijzondere groep kinderen. Bovendien werd de Kids with Intellectual Disabilities Pain Assessment Instrument for Non-verbal Signals (KIDPAINS) ontwikkeld en psychometrisch getest. Een instrument waarmee pijn bij kinderen met zeer ernstige meervoudige beperkingen op valide en betrouwbare wijze beoordeeld kan worden.

*Hoofdstuk 1*, de introductie van dit proefschrift, beschrijft de achtergrond en relevantie van het onderzoek. Bovendien geeft het een overzicht van non-verbale uitingen van pijn die op basis van de literatuur op het gebied van pijnbeoordeling bij kleine kinderen onderscheiden kon worden bij de aanvang van het onderzoek. Tevens wordt in dit hoofdstuk een facet design gepresenteerd waarin zeven dimensies van pijn beschreven zijn. Dit design werd ontwikkeld om het hele scala aan pijnuitingen te dekken en om uitingen van pijn met elkaar te kunnen vergelijken. Tenslotte wordt ingegaan op de doelstellingen en onderzoeksvragen die aan dit proefschrift ten grondslag liggen.

*Hoofdstuk 2* beschrijft de ontwikkeling van een database met pijnuitingen die op basis van kwalitatieve onderzoeksmethoden werd opgezet. Mogelijk pijngedrag werd verzameld door middel van (1) ongestructureerde interviews met professionele hulpverleners uit de zorg voor mensen met een verstandelijke beperking, (2) ongestructureerde interviews met ouders van kinderen en jong volwassenen met een ernstige tot zeer ernstige verstandelijke beperking, en (3) het observeren van deze groep kinderen en jong volwassenen tijdens mogelijk pijnlijke situaties. In totaal werden 209 uitingen van pijn in de database opgenomen. Deze uitingen kwamen gedeeltelijk overeen met de uitingen uit het literatuuronderzoek, beschreven in Hoofdstuk 1. Daarnaast is echter een groot aantal nieuwe uitingen geïdentificeerd. De bevindingen geven aan dat expressief pijngedrag van kinderen met een (zeer) ernstige verstandelijke beperking slechts gedeeltelijk is te vergelijken met het pijngedrag van normaal ontwikkelde kinderen. Hieruit volgt de veronderstelling dat functionele mogelijkheden en gangbare gedragspatronen mogelijk invloed hebben op het uiten van pijn binnen de populatie. Tevens werd vastgesteld dat men in de dagelijkse praktijk veel gebruik lijkt te maken van symptomen die wijzen op een weefselbeschadiging als indicator van pijn.

*Hoofdstuk 3* beschrijft een cross-sectioneel onderzoek uitgevoerd onder verpleegkundigen. Er is onderzocht in welke mate verpleegkundigen die in de praktijk zorg verlenen aan mensen met een ernstige of zeer ernstige verstandelijke

beperking de uitingen afkomstig uit de literatuur op het gebied van pijnbeoordeling in deze groep belangrijk vinden. Hierbij werden ook de nieuw geïdentificeerde items uit Hoofdstuk 2 meegenomen, alsmede signalen die wijzen op een weefselbeschadiging. Vervolgens zijn de gegevens van verpleegkundigen die zorg verlenen aan mensen met een ernstige verstandelijke beperking vergeleken met de gegevens van verpleegkundigen die zorg verlenen aan mensen met een diep verstandelijke beperking. De resultaten hiervan geven aan dat de functionele mogelijkheden en de mate van de verstandelijke beperking invloed lijken te hebben op de indicatoren die verpleegkundigen belangrijk vinden bij het vaststellen van pijn. De verpleegkundigen vinden overigens alle indicatoren belangrijk als het gaat om het vaststellen van pijn. Aan indicatoren die meer informatie verschaffen over de context van het pijngedrag en vragen die te maken hebben met tekenen van nociceptie wordt de meeste waarde gehecht. De gegevens uit dit onderzoek kunnen niet gebruikt worden om de database met indicatoren uit Hoofdstuk 2 te reduceren. Het onderzoek brengt echter wel twee nieuwe indicatoren aan het licht, waardoor het totaal aan uitingen in de database uitkomt op 211.

*Hoofdstuk 4* beschrijft de prevalentie van de zes dimensies van pijn in verschillende onderscheiden groepen kinderen met (zeer) ernstige verstandelijke beperkingen. Daarnaast wordt de mate waarin 145 uitingen van pijn voorkomen beschreven. Deze uitingen werden op het eerste gezicht valide bevonden door experts alsmede getest op inhoudsvaliditeit en interpreteerbaarheid (Hoofdstukken 2 en 3 en Appendix I). Informatie over de frequentie van het voorkomen van deze uitingen bij kinderen wordt verkregen door middel van een vragenlijst voor de ouders. Er is onderzocht of de mogelijkheden die kinderen hebben om pijn te kunnen uiten middels taal alsmede of het hebben van ernstige motorische beperkingen of gedragsproblemen pijngedrag beïnvloeden.

De resultaten van dit onderzoek geven onder andere aan dat kinderen met ernstige meervoudige beperkingen vaker pijn uiten middels uitingen die tot de dimensie Motoriek behoren. Hierbij valt bijvoorbeeld te denken aan *'In spanning komen, verkrampen, spasticiteit'*. Daarentegen uiten deze kinderen pijn minder vaak middels gedrag behorend tot de dimensie Aangedaan Lichaamsdeel. Zo zullen zij minder vaak *'Wrijven over het aangedaan lichaamsdeel'*. Kinderen met gedragsproblemen laten vaker een gedragsverandering zien op het gebied van de Sociaal-Emotionele of de Vocale dimensie (zoals *'Zichzelf bijten'* en *'Stereotiep, steeds herhalend geluid'*). Het onderzoek laat verder zien dat, hoewel er verschillen zijn in de mate waarin de 145 uitingen van pijn voorkomen, de verschillende groepen kinderen ook overeenkomsten hebben in hun pijngedrag. Items zoals *'Bewegingsonrust'* en *'Droevig kijken'* komen bij alle kinderen veelvuldig voor, ongeacht mogelijkheden en beperkingen. Volgens alle ouders is *'Hard, intens, doordringend huilen'* het meest belangrijke signaal dat een kind pijn heeft.

Gebaseerd op bovenstaande bevindingen is besloten om voor de verdere ontwikkeling van de KIDPAINS de populatie te beperken tot kinderen met een zeer ernstige verstandelijke beperking. Deze kinderen worden niet in staat geacht om pijn te uiten middels woorden. De resultaten van de vragenlijst voor de ouders werden mede gebruikt om indicatoren voor KIDPAINS te selecteren.

*Hoofdstuk 5* beschrijft het proces van selecteren van indicatoren voor KIDPAINS. Na reductie gebaseerd op een laatste controle van de ontwerpschaal (N=138) en de vragenlijsten voor ouders resteerden 114 uitingen van pijn. Deze zijn gebruikt voor het beoordelen van video-opnamen van 52 kinderen met een zeer ernstige verstandelijke beperking op vastgestelde tijdstippen voorafgaand aan en na een medische ingreep onder algehele narcose. Er zijn twee tijdstippen gekozen in een verondersteld pijnloze situatie (een dag voor de ingreep en een maand na de ingreep terug in de thuissituatie) en drie tijdstippen waarop verondersteld mag worden dat de kinderen onderhevig zijn aan pijn (dertig minuten, drie uur en 24 uur na de ingreep). Tot slot is een moment gekozen als interventie-specifiek moment, waarbij acute pijn verondersteld is. Het selecteren van indicatoren vond voor ieder tijdsinterval separaat plaats om het selectieproces te kunnen cross-valideren. Indicatoren zijn verwijderd op basis van (1) de mate waarin ze gescoord werden, (2) interne consistentie analyses en (3) Principale Componenten Analyse (PCA) per dimensie, voor ieder afzonderlijk tijdsstip. Daarnaast zijn indicatoren verwijderd op basis van een negatieve samenhang tussen componenten. Uiteindelijk resulteerde deze analyses in 42 pijnuitingen die gedurende minimaal één tijdsinterval werden geobserveerd. Het facet design uit Hoofdstuk 1 werd op basis van deze analyses gedeeltelijk losgelaten. Na subtractie van het 'normale' gedrag (één dag voor en één maand na de ingreep) van het gedrag op momenten van veronderstelde pijn bleek dat correlaties met de Visueel Analoge Schaal (VAS) met name significant waren voor de Gelaats-, Vocale en Sociaal-Emotionele componenten die middels PCA werden geïdentificeerd. Een vergelijking van de resultaten op verschillende tijdstippen bracht in totaal elf mogelijke componenten naar voren. Aangezien een duidelijke convergente relatie met VAS pijn niet voor alle componenten/dimensies aangetoond kon worden is verder onderzoek van de psychometrische kenmerken vereist.

*Hoofdstuk 6* beschrijft het verder psychometrisch testen van KIDPAINS bij kinderen met zeer ernstige meervoudige beperkingen. Constructvaliditeit werd onderzocht door het vormen van twee extreme groepen. Hiervoor werden VAS pijnscores gebruikt uit eerder onderzoek (Hoofdstuk 5) Vier beoordelaars, waaronder twee verpleegkundigen die niet bekend waren met de deelnemende kinderen en het onderzoek, observeerden video-opnamen van kinderen waarvan eerder verondersteld was dat ze pijn ondervonden, alsmede opnamen van kinderen die geen pijn leken te hebben. De resultaten van dit onderzoek leidden tot een verdere reductie en een uiteindelijk selectie van 18 indicatoren voor KIDPAINS.



Het ontwikkelde instrument bleek zowel intern consistent te zijn alsmede te leiden tot een goede overeenstemming tussen beoordelaars en binnen dezelfde beoordelaar. Op basis van Principale Componenten Analyse werden twee componenten geïdentificeerd. Daarnaast bleek dat de KIDPAINS sensitief en specifiek was, zowel in het differentiëren tussen pijn en geen pijn als in het differentiëren tussen gematigde en ernstige pijn. Op basis van deze resultaten werd een diagnostisch criterium vastgesteld voor zowel de aanwezigheid van pijn als de aanwezigheid van ernstige pijn. Bovendien vertoont KIDPAINS sterke convergente relaties met andere pijnbeoordelingsinstrumenten. Er werden echter ook correlaties vastgesteld met het construct Stress. Uit dit onderzoek kwam verder naar voren dat een schaal die ontwikkeld is voor de bredere groep van kinderen met een ernstige tot zeer ernstige verstandelijke beperking mogelijk leidt tot een onderschatting van de pijn van kinderen met zeer ernstige meervoudige beperkingen.

*Hoofdstuk 7* behelst de algemene discussie van de voornaamste bevindingen van alle onderzoeken die gepresenteerd worden in deze dissertatie. Hierbij wordt een verschil aangebracht tussen het bediscussiëren van het onderzoeken van expressief pijngedrag enerzijds en het ontwikkelen en psychometrisch testen van een pijnbeoordelingsschaal anderzijds. Zelfkritische vragen worden gesteld in het licht van de theoretische en methodologische overwegingen met betrekking tot beide onderwerpen. Tot slot wordt een update van de huidige stand van zaken in de literatuur weergegeven.

*Appendix I* beschrijft het proces van het opzetten van de database van 211 indicatoren (Hoofdstuk 2 en Hoofdstuk 3) en het verder ontwikkelen en reduceren van die database. Na het verzamelen van indicatoren hebben vier experts de indicatoren onderzocht op interpreteerbaarheid, met inbegrip van aspecten als begrijpelijkheid, dubbelzinnigheid, gebruik van jargon en mogelijke overlap tussen indicatoren. De overblijvende en eventueel aangepaste indicatoren werden gebruikt in een pilotstudy om hun toepasbaarheid te testen in een ziekenhuisomgeving. Hiervoor is een ontwerpschaal ontwikkeld. Gebaseerd op de resultaten van deze schaal vond verder aanpassing van de indicatoren plaats en werd een aantal uitingen verwijderd uit de selectie. De indicatoren zijn vervolgens verder getoetst op inhoudsvaliditeit door professionele hulpverleners in de zorg aan mensen met een verstandelijke beperking die een symposium bijwoonden over pijn in deze populatie. Hen werd gevraagd te beschrijven in hoeverre een pijnuiting voor hen bruikbaar was (niet, een beetje, zeer) en of zij nog aanvullende commentaren op de indicator hadden. Op basis van deze gegevens werden indicatoren aangepast of alsnog verwijderd. Gebaseerd op de overblijvende uitingen is een vragenlijst voor ouders samengesteld bestaande uit 145 vragen (Hoofdstuk 4) relaterend aan de 145 uitingen uit de ontwerpschaal op dat moment.

Een laatste check van deze schaal leidde tot het verwijderen van nog eens zeven uitingen, waardoor een schaal ontstond van 138 indicatoren.

*Appendix II* voorziet in de statistische achtergrondinformatie betreffende de reductie van indicatoren in Hoofdstuk 5 en Hoofdstuk 6. In deze hoofdstukken werd de selectie in eerste instantie teruggebracht van 138 naar 114 door gebruik te maken van de vragenlijsten van ouders van kinderen met zeer ernstige verstandelijke beperkingen die niet verbaal konden communiceren. Vervolgens is de selectie voor KIDPAINS op basis van klinische data verder teruggebracht van 114 naar 42 indicatoren. Tot slot zijn in Hoofdstuk 6 uiteindelijk 18 indicatoren geselecteerd voor de gereduceerde en definitieve versie van KIDPAINS die psychometrisch getest werd bij kinderen met een zeer ernstige meervoudige beperking.

