

Aus der Kinderklinik und Kinderpoliklinik
im Dr. von Haunerschen Kinderspital
Klinikum der Ludwig-Maximilians-Universität München
Vorstand: Univ. Prof. Dr. Dr. C. Klein

Motorik und Intervention – Einfluss auf die Lebensqualität bei Kindern mit Cerebralparese

Dissertation
zum Erwerb des Doktorgrades der Medizin
an der Medizinischen Fakultät der
Ludwig-Maximilians-Universität zu München

vorgelegt von
Birte Maren Sudhoff

aus
Tübingen

Jahr

2021

Mit Genehmigung der Medizinischen Fakultät
der Universität München

Berichterstatter: PD Dr. Sebastian Schröder

Mitberichterstatter: PD Dr. Dr. Ferdinand Wagner

Dekan: Prof. Dr. med. dent. Reinhard Hickel

Tag der mündlichen Prüfung: 04.02.2021

1	Einleitung	6
1.1	Cerebralpareesen	6
1.1.1	Definition, Epidemiologie und Ätiologie	6
1.1.2	Diagnostik und klinisches Bild	8
1.1.3	Klassifikation	10
1.1.4	Standardtherapie	14
1.1.4.1	Funktionelle Therapien und Hilfsmittel	17
1.1.4.2	Medikamentöse Therapie	17
1.1.4.3	Operative Therapie	18
1.2	Das ROBERT-Programm: Roboter-gestützte Laufbandtherapie als Therapieoption für Kinder mit Cerebralparese	19
1.3	Erfassung von Lebensqualität im Kindesalter	20
1.3.1	Das Verständnis von Gesundheit und Lebensqualität	20
1.3.2	Unterschiede etablierter Fragebögen zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern	23
1.3.2.1	Generische versus krankheitsspezifische Fragebögen	23
1.3.2.2	Self- versus Proxy-Fragebögen	24
1.3.2.3	Bandbreite der inhaltlichen Dimensionen	25
1.4	Lebensqualität bei Kindern mit Cerebralparese	25
1.4.1	“Study of PARTicipation of Children with cerebral palsy Living in Europe”-SPARCLE	25
1.4.2	“Caregiver Priorities and Child Health Index of Life with Disabilities”-CPCHILD®	26
1.4.2.1	Ursprung des Fragebogens: kanadische Version	26
1.4.2.2	Deutsche Fragebogenversion	27
1.4.2.3	Struktur und Bearbeitung des Fragebogens	27
2	Fragestellung	30
2.1	Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese - gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen?	30
2.2	Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten?	30

2.3	Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese? _____	30
2.3.1	Sechs bis neun Wochen nach Therapie? _____	31
2.3.2	Drei bis vier Monate nach Therapie? _____	31
2.4	Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese _____	31
3	Methodik _____	32
3.1	Studiendesign _____	32
3.2	Patientenkollektiv _____	32
3.3	Studienablauf _____	32
3.4	Aufbereitung der Daten _____	33
3.5	Datenanalyse und Statistik _____	34
3.5.1	Beschreibung des Patientenkollektivs _____	34
3.5.2	Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese – gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen? _____	34
3.5.3	Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten? _____	35
3.5.4	Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese? _____	35
3.5.5	Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese _____	36
4	Ergebnisse _____	37
4.1	Das Patientenkollektiv _____	37
4.2	Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese – gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen? _____	40
4.3	Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten? _____	43
4.4	Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese? _____	46

4.4.1	Sechs bis neun Wochen nach Therapie	46
4.4.2	Drei bis vier Monate nach Therapie	49
4.5	Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese	52
5	Diskussion	57
5.1	Diskussion der Ergebnisse im Kontext aktueller Literatur	57
5.1.1	Das Patientenkollektiv	57
5.1.2	Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese – gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen?	58
5.1.3	Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten?	59
5.1.4	Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese?	59
5.1.4.1	Sechs bis neun Wochen nach Therapie	60
5.1.4.2	Drei bis vier Monate nach Therapie	61
5.1.5	Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese	62
5.2	Stärken und Schwächen der durchgeführten Studie	64
6	Zusammenfassung	66
7	Anhang	69
7.1	Literaturverzeichnis	69
7.2	Abkürzungsverzeichnis	75
7.3	Abbildungsverzeichnis	76
7.4	Tabellenverzeichnis	77
7.5	Patientenfragebogen zur Erfassung der Lebensqualität: CPCHILD®	78
7.6	Danksagung	87
7.7	Eidesstattliche Versicherung	88

1 Einleitung

1.1 Cerebralpareesen

1.1.1 Definition, Epidemiologie und Ätiologie

Das Erkrankungsbild der Cerebralparese beschreibt eine vielschichtige Gruppe von Bewegungs- und Haltungsstörungen, die mit einer Aktivitätseinschränkung der betroffenen Kinder einhergeht. Ursache sind nicht progressive Schädigungen im sich in der Entwicklung befindenden fetalen oder kindlichen Gehirn. Die motorischen Funktionsstörungen gehen oftmals mit Beeinträchtigungen von Sinneswahrnehmung und Aufmerksamkeit, kognitiven Einschränkungen, Epilepsien oder Auffälligkeiten in Kommunikation und Verhalten einher. Die Arbeitsgruppe, die diese aktualisierte Definition der Cerebralparese 2004 auf einem internationalen Workshop in Bethesda erarbeitete, betont, dass die Cerebralparese keine ätiologische Diagnose, sondern vielmehr ein klinisch deskriptiver Begriff sei. (1)

Als häufigster Grund für Störungen der motorischen Entwicklung in der Kindheit treten Cerebralpareesen mit einer Prävalenz von 2-3/1000 Lebendgeborene auf (2, 3). Ein höheres Risiko zu erkranken besteht vor allem für Frühgeborene und Mehrlinge (4). Die Wahrscheinlichkeit für eine Cerebralparese steigt bei Kindern mit sehr niedrigem Geburtsgewicht („very low birth weight infants“), also einem Geburtsgewicht <1500g auf das 20- bis 80-fache im Vergleich zu Neugeborenen mit einem Geburtsgewicht >2500g an (2). In den 1970er Jahren stieg mit zunehmender Anzahl Frühgeborener aufgrund der Weiterentwicklung der Neugeborenenintensivpflege und -medizin und damit einer sinkenden perinatalen Mortalität die Prävalenz der Cerebralparese zunächst an. Seit den 1980er Jahren konnte ein Abfall der Gesamtprävalenz beobachtet werden. Eine schwedische Studie zeigte jedoch, dass dieser Trend um die Jahrhundertwende zum Erliegen gekommen ist. Mittlerweile liegt die Rate der insgesamt pro 1000 Lebendgeborenen an Cerebralparese Erkrankten konstant bei circa 2, wobei jedoch Umverteilungen der Untergruppen auffallen. So zeichnet sich in den letzten Jahren eine Zunahme der unilateralen Cerebralpareesen ab, die vor allem bei Reifgeborenen auftritt. (3, 5, 6)

Da die Cerebralparese aus einer Schädigung des Gehirns resultiert, die vor Abschluss der Gehirnentwicklung auftritt und diese noch über die ersten beiden Lebensjahre andauert, gibt es prä-, peri- und postnatale Ursachen (7, 8). 70-80% der Cerebralpareesen

haben jedoch einen pränatalen Ursprung (8). Zu den am häufigsten berichteten Risikofaktoren zählen neben der Frühgeburtlichkeit ein niedriges Geburtsgewicht, atypisches intrauterines Wachstum, mütterliche Infektionen - sowohl intra- als auch extrauterin, Fieber der Mutter unter der Geburt, Komplikationen durch Mehrlingsschwangerschaften, angeborene oder erworbene Thrombophilien von Mutter oder Kind, ein ischämischer Schlaganfall des Fötus oder Neugeborenen, Schilddrüsenerkrankungen der Mutter sowie Plazentapathologien (7, 9-11). Der - lange Zeit als prädominierende Ursache der Cerebralparese angesehenen - Asphyxie wird mittlerweile hingegen nur noch eine untergeordnete Rolle in der Ätiologie zugeschrieben (7, 10). Jeder dieser singulären Faktoren kann bei entsprechendem Schweregrad ausreichen, eine Cerebralparese zu verursachen, meist ist es jedoch die Kombination mehrerer Risikofaktoren, die zur Erkrankung führt (9). Trotz der großen Anzahl bekannter und vermuteter Risikofaktoren bleibt die genaue Ursache in den meisten Fällen von Cerebralparesen jedoch schwer fassbar (7). Neue Studien beschäftigen sich unter anderem auch mit der Bedeutung genetischer Einflussfaktoren. So gilt es als wahrscheinlich, dass bestimmte Gene die Vulnerabilität gegenüber Cerebralparesen an gewissen Punkten der Kausalkette beeinflussen. (12)

Je nach Zeitpunkt der Schädigung während der Gehirnentwicklung lokalisiert sich diese vornehmlich in bestimmten Hirnarealen, woraus sich ein jeweils dafür typisches Schädigungsmuster und klinisches Bild ergibt (9, 13). Die in 90% bei an Cerebralparese erkrankten Kindern mit sehr niedrigem Geburtsgewicht beobachtete Hirnschädigung bezeichnet man als periventrikuläre Leukomalazie. Vor der 32. Schwangerschaftswoche besteht aufgrund mangelnder Ausbildung des Gefäßbetts im Bereich der weißen Substanz eine Prädisposition für Ischämien in diesem Areal. Außerdem befindet sich zu diesem Zeitpunkt der Großteil der Oligodendrozyten in einem Vorläuferstadium (Präoligodendrozyten), welches besonders sensibel auf durch Ischämie verursachte freie Radikale reagiert. (14) Die typische klinische Folge hiervon ist die bilateral spastische Cerebralparese, welche mit knapp 50% den größten Anteil der Cerebralparesen ausmacht (13, 15). Je näher das Gestationsalter am Geburtstermin liegt, desto mehr nimmt die Vulnerabilität der weißen Substanz ab und Defekte der grauen Substanz treten in den Vordergrund: Schädigungen der Basalganglien bedingt durch Sauerstoffmangel oder Hyperbilirubinämie, welche eher die Ausprägungen der dyskinetischen Cerebralparesen als Folge haben, sind typische Gründe für die Enzephalopathie beim Neugeborenen (16).

1.1.2 Diagnostik und klinisches Bild

Cerebralpareesen werden in der Regel vor dem 3. Geburtstag diagnostiziert (17). Zu den ersten in der Neonatalperiode identifizierbaren Symptomen gehören Schwierigkeiten beim Schlucken und verminderte oromotorische Fähigkeiten; diese treten meist auf, bevor die Kinder durch das verspätete Erreichen von Meilensteinen der Entwicklung (wie Sitzen, Umdrehen, Krabbeln, oder Gehen) auffallen (17). Weitere Hinweise auf das Vorliegen einer Cerebralparese liefern abnorme Bewegungsmuster, ein Fehlen von Zappeln und Spontanbewegungen im Säuglingsalter, ein auffälliger Muskeltonus, ungewöhnliche Körperhaltungen, eine verfrühte Entwicklung der Handpräferenz (< 12 Monate), das Persistieren von frühkindlichen Reflexen über die gewöhnliche Zeitdauer hinaus, das Vorhandensein pathologischer Reflexe und das Ausbleiben der Entwicklung von Schutzreflexen (8, 17, 18).

Für die Diagnosestellung sind neben dem klinischen Bild eine gründliche körperliche Untersuchung, der zeitliche Verlauf der Symptomentwicklung, die Dokumentation des Erreichens von Meilensteinen der Entwicklung, eine ausführliche Schwangerschafts-, Geburts- und Familienanamnese, bildgebende Verfahren wie die transkranielle Sonographie, CT und MRT sowie gezielte Labortests von Bedeutung (8, 13). Die sichere Abgrenzung gegenüber metabolischen und neurodegenerativen Erkrankungen ist entscheidend, da in diesen Fällen eventuelle Therapiemöglichkeiten den neurologischen Status verbessern oder ein Fortschreiten der Erkrankung verhindern können (19). Zur Vervollständigung der Diagnose sollte die Diagnostik außerdem die Abklärung häufig assoziierter Begleiterscheinungen wie Beeinträchtigungen der Sinneswahrnehmung und Epilepsien einschließen (8).

Bei 70-80% der Patienten mit Cerebralparese zeigt die Bewegungsstörung spastische Anteile (8). Spastizität ist definiert als Hypertonie, die mit mindestens einem der folgenden Symptome einhergeht: 1. Der Widerstand auf passive Bewegung nimmt mit zunehmender Geschwindigkeit der Dehnung zu und variiert je nach Richtung der Gelenkbewegung, 2. Der Widerstand auf passive Bewegung nimmt ab einem Schwellenwert für Geschwindigkeit oder Gelenkwinkel schlagartig zu (sog. „catch“). Sie variiert je nach Wachheitsgrad, Aktivität und Körperhaltung des Kindes und kann durch Angst, Emotionen, Schmerz und andere Wahrnehmungen verstärkt werden. Oft tritt sie gemeinsam mit weiteren motorischen Symptomen auf, wie das beim Upper Motor Neuron (UMN) Syndrom der Fall ist. Die Läsion des 1. Motoneurons führt zu einer Störung des Gleichgewichts supraspinaler exzitatorischer und inhibitorischer

Einflüsse auf das Rückenmark, was letztlich eine Enthemmung spinaler Reflexe zur Folge hat. Der Begriff des UMN Syndroms wird verwendet, wenn Spastizität und mindestens ein weiteres der folgenden Merkmale auftreten, wobei man die dazugehörigen Symptome in positive und negative Merkmale unterteilen kann. Positive Merkmale sind eine Hyperreflexie mit oder ohne Klonus, ein positiver Babinskireflex oder ein erhöhter Muskeltonus. Zu den negativen Merkmalen gehören die Muskelschwäche primär der Flexoren der unteren Extremität und der Extensoren der oberen Extremität, eine schnelle Ermüdbarkeit sowie der Verlust von Kraft, Koordination und Geschicklichkeit. (8, 20, 21) Die Spastizität resultiert aus einer Läsion des Cortikospinalen Trakts bzw. parapyramidalen Fasern im Verlauf der motorischen Bahnen im Cortex, den Basalganglien, dem Thalamus, dem Kleinhirn, dem Hirnstamm, der zentralen weißen Substanz oder des Rückenmarks, wobei cerebrale Schädigungen deutlich häufiger Ursache sind als spinale (21-23). Klassischerweise betrifft die Spastizität manche Muskelgruppen mehr als andere: die Flexoren, Innenrotatoren und Adduktoren sind häufig stärker betroffen als ihre Antagonisten, was ein charakteristisches klinisches Erscheinungsbild betroffener Kinder zur Folge hat (23). Dieses beinhaltet typischerweise eine Innenrotation der Schulter, Pronation des Unterarms, Flexion im Ellbogen- und Handgelenk und einen eingeschlagenen Daumen an der oberen Extremität sowie Adduktion und Flexion in der Hüfte, Flexion des Knies, Spitzfuß, Valgusstellung des Hinterfußes und Varusstellung des Mittelfußes mit Hallux valgus an der unteren Extremität. Hieraus ergeben sich Auffälligkeiten im Gangbild, wie zum Beispiel der Zehenspitzenengang (Spitzfuß), der Kauergang (Hüft- und Knieflexion) oder der Scherengang (Hüftadduktion). Die Spastizität mit dem aus ihr resultierenden, auf die Gelenke wirkenden Ungleichgewicht der Muskelkraft kann zudem sekundär zu muskuloskeletalen Folgeschäden führen. Mit der Zeit können Verkürzungen der Muskel-Sehnen-Einheiten, Gelenkkontrakturen, Knochendeformitäten und Instabilitäten bis hin zu Luxationen der Gelenke die Folge sein. (13, 24)

Eine weitere Art der bei Patienten mit Cerebralparese vorkommenden Bewegungsstörungen ist die Dystonie. Sie wird definiert als Bewegungsstörung, bei der unwillkürliche, dauerhafte oder intermittierende Muskelkontraktionen zu verdrillenden, periodisch wiederkehrenden Bewegungen und oder abnormalen Haltungen führen. Für gewöhnlich ausgelöst oder verschlimmert durch Inangriffnahme willkürlicher Bewegungen, kann die Dystonie in Ausprägung und Intensität im Verlauf der Zeit

schwanken. Es gilt als wahrscheinlich, dass sie meist auf Läsionen der Basalganglien zurückzuführen ist, genauso wie dies bei der choreo-athetotischen Cerebralparese, der anderen Ausprägung dyskinetischer Cerebralparesen der Fall zu sein scheint. (20, 25) Diese ist charakterisiert durch eine Hyperkinesie und schwankenden Muskeltonus, mit schnellen, unbeabsichtigten, ruckartigen, häufig fragmentierten Bewegungen bzw. langsamen, stetig wechselnden, sich windenden oder verdrehenden Bewegungen (26).

Die seltenste Form, die ataktische Cerebralparese, in der Regel hervorgerufen durch eine Kleinhirnschädigung, betrifft 5-10% der Patienten und beeinträchtigt vornehmlich das Gleichgewicht und die Koordination. Die Betroffenen haben einen breitbasigen Gang und leiden unter einem Intentionstremor, der ihnen all jene Aufgaben des täglichen Lebens erschwert, die feinmotorische Fähigkeiten voraussetzen. (8, 10)

Neben diesem weiten Feld motorischer Symptome geht die Cerebralparese häufig mit weiteren Störungen einher. Diese reichen von kognitiven Einschränkungen, Aufmerksamkeits- und Wahrnehmungsstörungen, Lernschwächen, Problemen in Kommunikation und sozialer Interaktion, Verhaltensauffälligkeiten inklusive solcher, im Rahmen psychiatrischer Erkrankungen wie Autismus, ADHS, affektiver Störungen oder Angststörungen vorkommender, über Harninkontinenz, Seh- und Hörstörungen bis hin zu Epilepsien. (1, 13)

Obwohl die primäre Schädigung des Gehirns nicht progressiv ist, ist die Pathologie dauerhaft und sind viele der klinischen Einschränkungen inklusive der muskuloskelettalen Folgeschäden erworben und mit der Zeit fortschreitend (13, 27). Je nach Schweregrad erleben die Kinder mehr oder weniger Einschränkungen in den Aktivitäten des täglichen Lebens, in Kommunikation, Mobilität und Gesundheit und sind oftmals lebenslang auf die Unterstützung durch ihre Eltern oder Pflegepersonen angewiesen, was für alle beteiligten Familienmitglieder eine Belastung darstellen kann (27, 28).

1.1.3 Klassifikation

Es sind verschiedene Arten der Einteilung von Cerebralparesen üblich. Die Folgende ordnet die Bewegungsstörung nach vorherrschenden Symptomen und anatomischen Begebenheiten in drei Hauptgruppen ein:

<p>Spastische Cerebralparese 70-80%</p>	<p>Dyskinetische Cerebralparese 10-20%</p>	<p>Ataktische Cerebralparese 5-10%</p>
<p>Charakterisiert durch mind. zwei der folgenden Symptome:</p> <ul style="list-style-type: none"> • Abnorme Haltung- und/oder Bewegungsmuster • Erhöhter Muskeltonus (nicht zwingenderweise anhaltend) • Pathologische Reflexe (gesteigerte Reflexe: Hyperreflexie und/oder Pyramidenbahnzeichen, z.B. Babinski) <p>➔ Bilaterale Form: Extremitäten beider Körperhälften betroffen</p> <p>➔ Unilaterale Form: Extremitäten einer Körperhälfte betroffen</p>	<p>Beherrscht durch die beiden folgenden Symptome:</p> <ul style="list-style-type: none"> • Abnorme Haltung- und/oder Bewegungsmuster • Unwillkürliche, unkontrollierte, wiederkehrende, gelegentlich stereotype Bewegungen <p>➔ Dyston: Hypokinesie (verminderte Aktivität, d.h. starre Bewegungen) + Hypertonie (Muskeltonus gewöhnlich erhöht)</p> <p>➔ Choreo-athetotisch: Hyperkinesie (gesteigerte Aktivität, d.h. ungestüme Bewegungen) + Hypotonie (Muskeltonus gewöhnlich vermindert)</p>	<p>Bestimmt durch:</p> <ul style="list-style-type: none"> • Abnorme Haltung- und/oder Bewegungsmuster • Verlust der geordneten Muskelkoordination (Ausführung von Bewegungen mit abnormer Kraft, Rhythmus und Genauigkeit)

Tabelle 1: Phänotypen der Cerebralparesen nach SCPE-Klassifikation (2, 8)

Hierbei sind jeweils typische Lokalisationen für die während der fetalen oder neonatalen Entwicklung auftretenden Schädigungen bekannt. Die Ursache der spastischen Form der Cerebralparese ist meist periventrikulär lokalisiert, während Schädigungen der Basalganglien zur dyskinetischen Ausprägung und die des Kleinhirns zur ataktischen Form der Cerebralparese führen. (10)

Neben dieser Form der Einordnung der Cerebralparesen ist vor allem die Einteilung nach dem klinischen Schweregrad von Bedeutung, wofür Palisano et al. das sogenannte „Gross Motor Function Classification System“ (GMFCS) entwickelten und später erweiterten und überarbeiteten (29, 30). Dieses international angewandte, standardisierte Klassifikationssystem ist einfach und schnell in den klinischen Alltag zu integrieren, da keine besonderen Fertigkeiten oder Prozeduren zur Anwendung von

Nöten sind (31). Als valides und reliables Messinstrument ordnet es Kinder und Jugendliche bis 18 Jahre mit Cerebralparese gruppiert in mehreren Altersstufen nach ihren allgemeinen motorischen Fähigkeiten fünf Gruppen zu. Dabei nimmt die körperliche Einschränkung der Kinder von Level I bis Level V zu, so dass Level V den motorisch am schwersten beeinträchtigten Kindern entspricht. Die hierbei betrachteten motorischen Fertigkeiten sollen sich nicht an der bestmöglichen Leistung orientieren, sondern das alltägliche motorische Geschehen abbilden. (29, 30, 32) In einer Studie von Palisano et al. aus dem Jahr 2006 konnte ein Nachweis für die Stabilität des GMFCS-Levels mit zunehmendem Alter des Kindes erbracht werden (33). Dem GMFCS wird ein hoher prognostischer Wert bezüglich der späteren motorischen Entwicklung der beurteilten Kinder zugesprochen (31, 32, 34, 35). Außerdem hilft es bei der Auswahl der im zeitlichen Verlauf am besten geeigneten Therapiemöglichkeiten (35, 36).

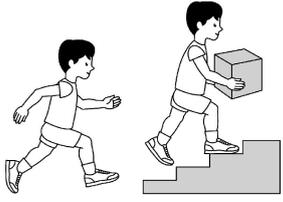
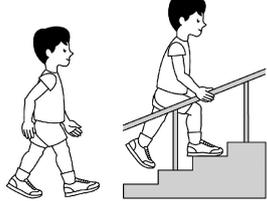
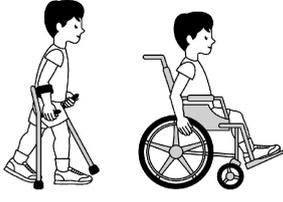
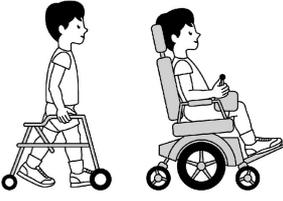
<p>GMFCS- Level I</p>	<p>Gehen drinnen und draußen sowie Treppensteigen ohne Einschränkung möglich Rennen und Springen möglich, aber mit Einschränkungen in Geschwindigkeit, Gleichgewicht und Koordination</p>	
<p>GMFCS- Level II</p>	<p>Gehen drinnen und draußen, sowie Treppensteigen unter Zuhilfenahme eines Geländers möglich Schwierigkeiten beim Gehen auf unebenem Gelände, am Hang, in Menschenmengen oder auf beengtem Raum Allenfalls geringe Fähigkeiten zur Durchführung grobmotorischer Aktivitäten wie Rennen und Springen</p>	
<p>GMFCS- Level III</p>	<p>Gehen drinnen oder draußen auf ebenem Untergrund mit Hilfsmitteln möglich Treppensteigen eventuell unter Zuhilfenahme des Geländers möglich Manuelles Antreiben eines Rollstuhls möglich, bei längeren Strecken oder auf unebenem Gelände wird fremde Hilfe benötigt</p>	
<p>GMFCS- Level IV</p>	<p>Teilweise Gehen mit Walker für kurze Strecken möglich oder Angewiesen-Sein auf den Rollstuhl als Transportmittel zu Hause, in der Schule und unterwegs Eigenständige Mobilität durch Benutzung eines elektrischen Rollstuhls möglich</p>	
<p>GMFCS- Level V</p>	<p>Schwierigkeiten bei der bewussten Bewegungskontrolle und dem Aufrechterhalten entgegen der Schwerkraft gerichteter Kopf- und Rumpfhaltungen Einschränkungen in allen Teilbereichen der Motorik Keine unabhängige Mobilität möglich</p>	

Tabelle 2: Das Gross Motor Function Classification System für Kinder von 6-12 Jahre (37)

Als eine weitere klinische Einteilung entwickelten Eliasson et al. das „Manual Ability Classification System“ (MACS) um zu beurteilen, wie Kinder mit Cerebralparese im Umgang mit Objekten des Alltags ihre Hände nutzen. Die Klassifikation soll die typische alltägliche Handfunktion der Kinder widerspiegeln, nicht ihre bestmögliche Leistung. Es wird die Gesamtperformance berücksichtigt und nicht die Funktion jeder einzelnen Hand. Bei der Definition der fünf Levels wurde darauf geachtet, dass die Unterschiede der Handfunktion klinisch bedeutsam sein sollten. Die durchgeführte

Studie zeigte eine gute Validität und Reliabilität, insbesondere die Interrater-Reliabilität zwischen Eltern und Therapeuten sowie zwischen verschiedenen Therapeuten war exzellent. (38)

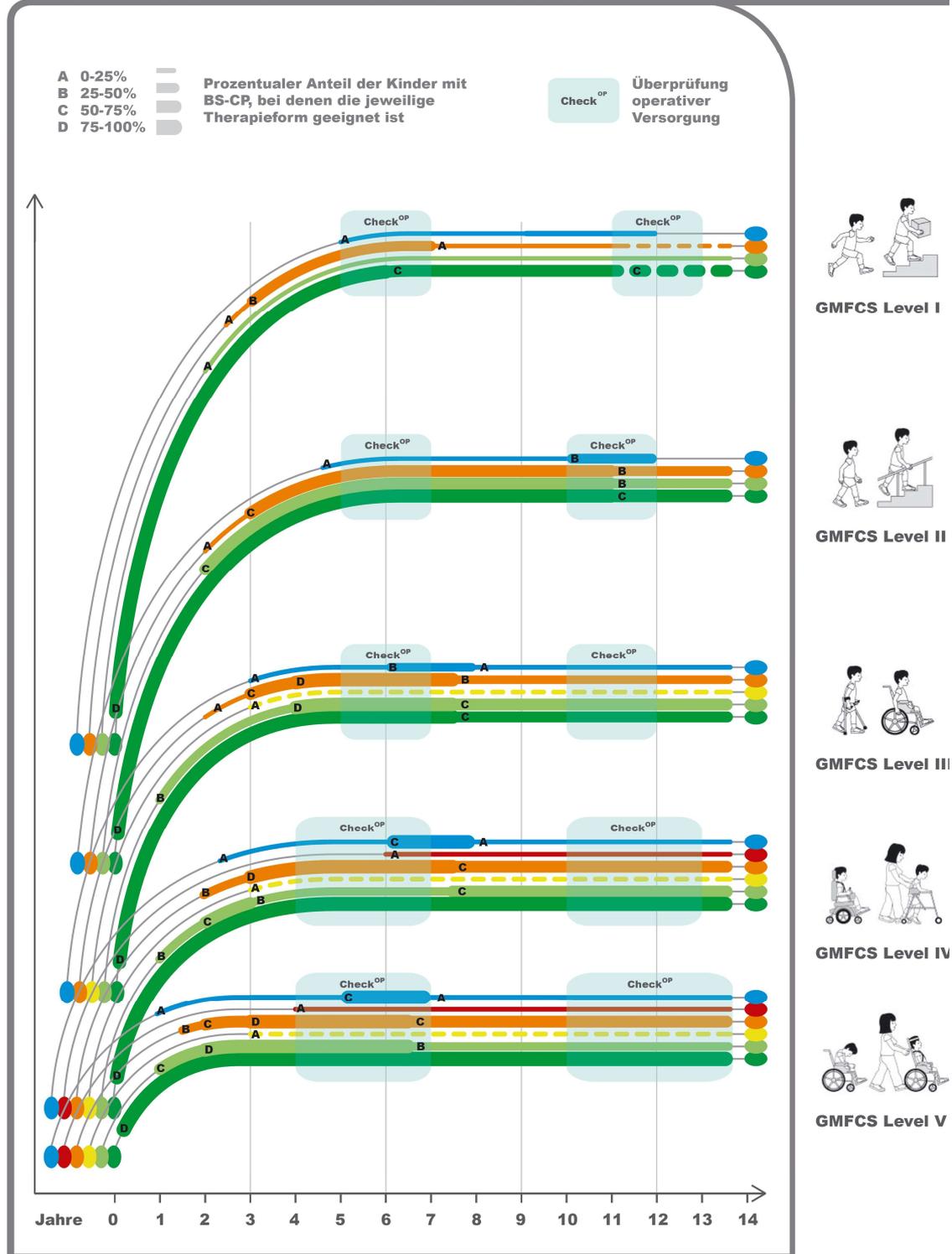
1.1.4 Standardtherapie

Das Hauptziel jedes Therapieplans für Kinder mit spastischer Cerebralparese ist es, die Funktionsfähigkeit zu maximieren und die Entstehung sekundärer Probleme wie zum Beispiel Gelenkkontrakturen zu minimieren und somit die Notwendigkeit operativer Eingriffe hinauszuzögern oder abzuwenden (18). Das primäre Ziel der Behandlung gehfähiger Kinder mit Cerebralparese (GMFCS-Level I-III) ist es, deren Gang zu optimieren. Hierhinter verbirgt sich die Erwartung, damit ihre körperliche Tätigkeit aufrechtzuerhalten oder zu verbessern und ihnen die Möglichkeit zu geben, ihre Teilhabe an alltäglichen körperlichen Aktivitäten, Freizeitbeschäftigungen und Sport zu steigern. Die Verbesserung des Gangs bezieht sich auf Geschwindigkeit und Ausdauer, Gleichgewicht und Stabilität, die Prävention von Stolpern und Stürzen, die verringerte Notwendigkeit von Gehhilfen und die Reduktion von Schmerzen; für viele Kinder und vor allem deren Eltern ist zudem die Verbesserung des Gangbilds ein wichtiges Therapieziel. (24)

Bei der großen Bandbreite klinischer Symptome bei Kindern mit Cerebralparese ist die Ausarbeitung eines individuellen, genau auf die Bedürfnisse und Probleme des jeweiligen Kindes zurechtgeschnittenen, Therapieplans notwendig. Hierfür ist die gute Zusammenarbeit eines interdisziplinären Teams aus Ärzten verschiedener Fachrichtungen, Physio- und Ergotherapeuten, Logopäden, Psychologen, Orthopädietechnikern und Sozialpädagogen maßgeblich. Je nach Alter und Entwicklungsstand des Kindes differieren die Therapiemöglichkeiten, wobei meist eine Kombination mehrerer Therapien zum Einsatz kommt. Zu den gängigen Optionen in der Behandlung der Spastizität gehören derzeit Physiotherapie, geräteunterstützte Therapie, orale sowie parenterale Medikation und operative Verfahren. Generell ist zu beachten, dass sich die grobmotorischen Fähigkeiten bei Kindern mit Cerebralparese bis zu einem Alter von 6-7 Jahren verbessern, dabei ein je nach GMFCS-Level unterschiedliches Plateau erreichen und dann zumindest bis ins frühe jugendliche Alter konstant bleiben, wobei Kinder der GMFCS-Level III-V ab der Jugend einen gewissen Grad an Verschlechterung motorischer Funktionen zeigen. Dies muss bei der Interpretation von Therapieerfolgen sowie der Wahl des richtigen Zeitpunkts für die

jeweiligen Therapien beachtet werden. (13, 24) Für ein optimales therapeutisches Ergebnis sollte in jedem Fall früh mit den Interventionen begonnen werden, um sich das Entwicklungspotential der Kinder in dieser Lebensphase zu Nutze zu machen (39). Abbildung 1 zeigt eine Übersicht der geeigneten Therapieoptionen abhängig vom Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung und dem Alter des betroffenen Kindes (40).

THERAPIEKURVEN CP-MOTORIK



Grün funktionelle Therapien, hellgrün Orthesen/Hilfsmittel/Mobilitätshilfen, gelb orale Medikamente, orange Botulinumtoxin, rot intrathekales Baclofen, blau Orthopädie

Abbildung 1: Therapiekurven CP-Motorik von Heinen et al. (40)

1.1.4.1 Funktionelle Therapien und Hilfsmittel

Physiotherapie, Ergotherapie, Orthesen und Schienen sowie alle Kombinationen dieser Methoden kommen zum Einsatz, um den Bewegungsumfang der Gelenke aufrechtzuerhalten oder zu verbessern, schwache Muskeln zu fördern, spastische agonistische Muskeln zu hemmen, die Muskelkraft zu verbessern, und die motorische Entwicklung der Kinder zu fördern. Orthesen führen zu einer funktionellen Verbesserung, indem sie die Gelenke im Gang und Stand stabilisieren, Kontrakturen vorbeugen und den Bewegungsumfang der Gelenke erhalten, Schienen dienen zum Erhalt der Muskellänge. Zusätzlich können Hilfsmittel wie ein Rollstuhl, Walker, Stöcke oder Stehhilfen Erleichterung im Handling des Alltags bewirken. (13)

Sprachtherapeuten trainieren die Artikulation und oromotorische Defizite, wie sie z.B. bei der Nahrungsaufnahme auftreten und helfen, wenn nötig, beim Erlernen des Gebrauchs von Kommunikationshilfen (17).

1.1.4.2 Medikamentöse Therapie

Zur Behandlung der Spastizität stehen verschiedene oral, intrathekal und intramuskulär applizierbare Pharmaka zur Verfügung, wobei einige von ihnen trotz regelmäßigen Einsatzes bei Kindern mit Cerebralparese keine Zulassung für die Behandlung der Spastizität in der Pädiatrie haben. Die Indikation für orale Medikamente zur Reduktion von Spastizität beschränkt sich auf schwerer betroffene Kinder ab GMFCS-Level III oder IV. Zum Einsatz kommen z.B. Benzodiazepine oder Baclofen, die als GABA-Agonisten die inhibitorische Wirkung dieses Transmitters verstärken und somit zu einer allgemeinen Senkung des Muskeltonus führen. Gleichzeitig bringen sie jedoch die Gefahr der Toleranzentwicklung und systemische Nebeneffekte wie eine Sedierung mit sich, weshalb oftmals nicht die zur Tonusreduktion notwendige Dosis verabreicht werden kann. Die bevorzugte Alternative – die intrathekale Verabreichung von Baclofen mit Hilfe einer programmierbaren Pumpe über einen spinalen Katheter – benötigt im Vergleich zur oralen Darreichungsform 100-1000fach geringere Dosen bei direktem Angriffspunkt auf spinaler Ebene und führt nachweislich zu einer funktionellen Verbesserung sowie Steigerung der Lebensqualität bei Patienten mit schwerer, generalisierter Spastizität und Bewegungsstörung. Die dritte Möglichkeit zur medikamentösen Behandlung der Spastizität, die Injektion von Botulinumtoxin A in betroffene Muskeln unter Ultraschallkontrolle mit dem Ziel einer Korrektur spastischer Ungleichgewichte über ein Gelenk hinweg, ist mittlerweile für jeden Schweregrad der

Cerebralparese etabliert. Über die lokale Hemmung der Freisetzung des Transmitters Acetylcholin in den synaptischen Spalt der motorischen Endplatte wird eine dosisabhängige Tonusreduktion in den entsprechenden Muskeln für drei bis sechs Monate bewirkt. Eine Kombination mit weiteren therapeutischen Methoden zur Kräftigung der nicht-injizierten Gegenspieler in der Folgezeit führt zu einer Steigerung des Therapieerfolgs. Das beste Ansprechen auf diese Therapie ließ sich für Kinder zwischen zwei und sechs Jahren nachweisen. Im Gegensatz zu den anderen Therapieverfahren wird sie besonders zur Behandlung fokaler Spastizität eingesetzt. Bei einer nicht-fokalen Erkrankung wie der Cerebralparese kann deshalb die gleichzeitige Behandlung mehrerer verschiedener Muskelgruppen notwendig werden, auch wenn möglicherweise nicht alle spastischen Muskeln einzeln behandelt werden können. Die sorgfältige Auswahl der zu injizierenden Muskeln ist daher sehr wichtig, um angemessene funktionelle Fortschritte zu erzielen. Dieses seit 1988 klinisch in der Behandlung der mit Cerebralparesen assoziierten Spastizität angewandte Verfahren zeigt eine gute Sicherheit, wobei unerwünschte Wirkungen vor allem bei einem Überschreiten der empfohlenen Gesamtdosis auftreten. (13, 36, 41, 42)

1.1.4.3 Operative Therapie

Um die motorische Entwicklung von Kindern mit Cerebralparese zu optimieren, ist es von großer Bedeutung, so früh wie möglich auch orthopädische Spezialisten in die therapeutischen Entscheidungen mit einzubeziehen. Je höher das GMFCS-Level, desto früher sollten auch operative Eingriffe in Betracht gezogen werden, um den richtigen Zeitpunkt für die jeweilige Therapie zu erfassen; dies kann durch regelmäßige Evaluationen eines Patienten durch ein interdisziplinäres Team am besten gewährleistet werden. Generell sind operative Verfahren für jeden Schweregrad der Cerebralparese etabliert. Mit zunehmendem Alter der Patienten nimmt die Häufigkeit von Kontrakturen, Gelenkluxationen und Knochendeformitäten und daraus resultierend Schmerzen und Funktionsbeeinträchtigungen zu. Das Ziel eines orthopädischen Eingriffs ist nicht die Behandlung der Spastizität an sich, sondern die Korrektur der aus ihr resultierenden strukturellen Veränderungen an einem oder mehreren Gelenken, um dadurch der Entstehung sekundärer Knochendeformitäten vorzubeugen. Im Falle schon aufgetretener irreversibler ossärer Veränderungen ist die Rekonstruktionschirurgie eine Möglichkeit zur Verbesserung der Funktionsfähigkeit und Erleichterung der Pflege. Die wesentlichen Techniken sind eine Verlängerung verkürzter Muskel-Sehnen-Einheiten,

Rotationsosteotomien, Gelenkstabilisierungen, Prävention und Therapie von Hüftdislokationen sowie eine Korrektur von Wirbelsäulendeformitäten. Trotz guter Erfolge einer operativen Versorgung bei bestimmten Patienten sollten jedoch immer die Irreversibilität eines solchen Eingriffs, mögliche Komplikationen und die eventuelle Notwendigkeit erneuter Operationen bedacht werden. (13, 36, 41)

1.2 Das ROBERT-Programm: Roboter-gestützte Laufbandtherapie als Therapieoption für Kinder mit Cerebralparese

Das Laufbandtraining zur Rehabilitation der Fortbewegungsfähigkeit von Patienten mit Rückenmarksverletzungen oder Schlaganfall ist schon seit einigen Jahren an vielen Rehabilitationszentren der Welt etabliert (43). Als eine Sonderform der Physiotherapie spielt das Laufbandtraining in den letzten Jahren zunehmend auch eine Rolle in der Behandlung von Kindern mit zentralen Bewegungsstörungen wie zum Beispiel der Cerebralparese. Basierend auf dem Konzept des aufgabenspezifischen Lernens und repetitiven Übens ermöglicht es den Patienten durch zahlreiche Wiederholungen komplexer Gangzyklen das Erlernen beziehungsweise Verbessern ihrer Gehfähigkeit. (44) Das „Body Weight Supported Treadmill Training“ (BWSTT) wird schon seit einigen Jahren zur Verbesserung der Bewegungsfunktion bei Patienten mit neurologischen Gangstörungen angewandt, zu Beginn in Form des manuell-assistierten Laufbandtrainings und in seiner Weiterentwicklung dann in Form des Roboter-assistierten Laufbandtrainings (45). Bei dem manuellen Training wird der Patient, der über ein spezielles Gurtsystem teilweise gewichtsentlastet auf dem Laufband platziert ist, von zwei Physiotherapeuten in der Bewegung seiner Beine unterstützt. Zur Ermöglichung längerer Therapiezeiten und –intensitäten und Verbesserung der Qualität des Trainings wurde 1999 eine Roboter-assistierte Gangorthese namens Lokomat® (Hocoma AG, Volketswil, Schweiz) eingeführt, die vollautomatisiertes Laufbandtraining ermöglicht. (43) Der Lokomat® besteht aus zwei Orthesen, die sich an die Anthropometrie des Patienten anpassen lassen und jeweils über drei Gurte an den Beinen des Patienten fixiert sind (46). Er ist mit einem Gewichtsentlastungssystem verbunden, welches den Patienten mittels Brustgurt und Beinschlaufen variabel von seinem Körpergewicht entlastet. Mit vier Freiheitsgraden an den Hüft- und Kniegelenken sind vertikale hinauf- und hinab-Bewegungen des Patienten möglich, während seitliche Imbalancen verhindert werden (43). Über Fußhebergurte werden die Sprunggelenke passiv in die zum Gehen richtige Position gebracht. Mit einem

Computer können über die Lokocontrol® Software Gewichtsentlastung, Schrittlänge, Führungskraft und Gehgeschwindigkeit verändert werden. Für Kinder ab 4 Jahren bzw. mit einer Femurlänge von 21-35 cm gibt es seit 2006 pädiatrische Orthesen, größere Femurlängen machen den Einsatz des Erwachsenenmoduls erforderlich. (46, 47)

Roboter-gestützte Laufbandtherapien werden inzwischen immer häufiger auch zur Verbesserung der motorischen Gangfunktionen von Kindern mit Cerebralparese genutzt (46). Das Roboter-gestützte repetitive Laufbandtraining (robot-enhanced repetitive treadmill therapy = ROBERT) mit dem Lokomat® bestehend aus zwölf Therapiesessions über drei Wochen, wurde in dieser Form weltweit als erstes im Dr. von Haunerschen Kinderspital in Kooperation mit dem Kinder- und Jugend-Rehabilitationszentrum Affoltern etabliert. Es hat bereits in mehreren Studien eine Verbesserung der grobmotorischen Fähigkeiten bei Kindern mit Cerebralparese gezeigt (46, 48, 49). In den Studien von Meyer-Heim und Borggräfe konnte ein positiver Einfluss auf die Gehgeschwindigkeit (10-Meter-Gehtest) sowie die Dimensionen D (Stehen) und E (Gehen, Rennen, Hüpfen) des GMFM-66 nachgewiesen werden (48, 49). Schröder zeigte nach ROBERT neben der Verbesserung der ICF-Domäne „Aktivität“, bestimmt durch GMFM-66-Total-Score, Dimension D und E auch eine klinisch bedeutsame Verbesserung der ICF-Domäne „Partizipation“ anhand des „Canadian Occupational Performance Measures“ (COPM) (46, 50). Die Nachhaltigkeit gemessener funktioneller Verbesserungen belegte Borggräfe über einen Zeitraum von sechs Monaten (51). Die in dieser Arbeit interessierende Fragestellung lautet, welcher Einfluss auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität behandelter Kinder neben der funktionellen Verbesserung durch diese Therapiemethode erzielt werden kann.

1.3 Erfassung von Lebensqualität im Kindesalter

1.3.1 Das Verständnis von Gesundheit und Lebensqualität

Im Verlauf des letzten Jahrhunderts hat sich bezüglich des Verständnisses von Gesundheit und Lebensqualität ein Wandel ergeben. Früher stand bei dem Konzept und der Messung von Gesundheit der schlechte Gesundheitszustand im Mittelpunkt der Bewertung. Deshalb wurden schlichte Maßzahlen wie die Mortalität oder die Prävalenz einzelner somatischer Erkrankungen zum Vergleich der Gesundheit verschiedener Bevölkerungsgruppen herangezogen. Mit der Beherrschung vorheriger epidemischer Krankheiten und der vermehrten Entwicklung chronischer Erkrankungen bei steigender

Lebenserwartung, ergab sich zur Mitte des 20. Jahrhunderts eine neue Art von Gesundheitsproblemen. Es formte sich das heutige Verständnis von Gesundheit mit seinem multidimensionalen Ansatz, wodurch die Weltgesundheitsorganisation im Jahr 1946 dazu ermutigt wurde, den Begriff Gesundheit neu zu definieren. (52)

„Health is a state of complete physical, mental and social well-being and not merely the absence of disease or infirmity.”

Constitution of the World Health Organization, adopted July 22, 1946 by the International Health Conference convened by the Economic and Social Council of the United Nations in New York City (53)

Neben der physischen Gesundheit rücken nun vor allem das mentale und soziale Wohlbefinden des Individuums in den Mittelpunkt. Damit ist die Lebensqualität, insbesondere bei Patienten mit chronischen Erkrankungen, zu einem Hauptaugenmerk in der Gesundheitsversorgung geworden (54-56). Da die medizinische Versorgung nicht nur somatische, sondern auch emotionale und soziale Aspekte tangiert, ist es wichtig, vermehrt die Sicht des Patienten einzubeziehen (57). Aus diesem Grund spielt die Messung gesundheitsbezogener Lebensqualität (HrQoL) von Erwachsenen und Kindern sowohl in der klinischen Forschung, als auch in der klinischen Praxis als Erfolgsmaß eine immer größere Rolle (58). Die aus ihr gewonnene Information kann bei der klinischen Entscheidungsfindung unterstützend wirken, indem sie den Kliniker auf die Lebensbereiche aufmerksam macht, die für den Patienten und seine Familie für das Funktionieren des Alltags von besonderer Bedeutung sind, die Kommunikation zwischen Patient und Arzt erleichtern und zur Beurteilung von Therapieerfolgen genutzt werden (59-61). Den im klinischen Alltag vorgenommenen Messungen der Lebensqualität liegt die Idee zugrunde, dass sich die Behandlungspläne und –auswertungen nach dem individuellen Patienten und nicht der Diagnose richten (61). Lebensqualität bezieht sich für verschiedene Menschen auf unterschiedliche Dinge und kann für eine Person zu verschiedenen Zeitpunkten Unterschiedliches bedeuten, da sie sich als dynamisches Phänomen mit Veränderung der Prioritäten über die Zeit entwickelt (27).

Nicht selten werden bei einem Versuch der Definition, die Begriffe Lebensqualität und Lebensstandard unscharf getrennt; kulturvergleichende Beispiele zeigen, dass teilweise große Unterschiede der Vorstellungen bestehen, so dass die World Health Organization

Quality of Life (WHOQOL) Assessment Group erstmals kulturelle Komponenten zu einem Bestandteil ihrer Definition der Lebensqualität machte. (62)

Quality of life is defined as “individuals’ perception of their position in life in the context of culture and value systems in which they live and in relation to their goals, expectations, standards and concerns. It is a broad ranging concept affected in a complex way by the persons’ physical health, psychological state, level of independence, social relationships and their relationships to salient features of their environment”.

WHOQOL Group 1993 (63-65)

Auch wenn es etliche verschiedene Definitionen der Lebensqualität gibt (66), so besteht Einvernehmen unter den meisten Wissenschaftlern der Lebensqualitätsforschung bezüglich dreier Hauptmerkmale:

1. Lebensqualität ist eine subjektive Größe, deshalb ist die Wahrnehmung des Patienten ausschlaggebend.
2. Sie ist ein multidimensionales Konstrukt. Mindestbestandteile bilden das physische, psychische und soziale Wohlbefinden, einige Definitionen schließen verschiedene zusätzliche Dimensionen ein.
3. Positive (Zufriedenheit, Mobilität) und negative (Abhängigkeit von Medikamenten, Schmerzen) Merkmale tragen zur individuellen Lebensqualität bei. (65)

Obwohl diese generelle Beschreibung auch auf die Lebensqualität von Kindern zutrifft, unterscheiden sich die spezifischen Aspekte des Lebens eines Kindes, die diese drei Hauptdimensionen betreffen. Dementsprechend ist es wichtig bei der Entwicklung eines Fragebogens zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität darauf zu achten, dass die Themen den Aktivitäten, Erfahrungen und Umständen der jeweiligen Altersgruppe entsprechen. Insgesamt spielt das soziale Umfeld im Leben eines Kindes eine andere und vermutlich wichtigere Rolle als im Erwachsenenalter. Kinder haben in der Regel keine Möglichkeit einem problematischen Umfeld zu entkommen und es zeigte sich, dass Kontextfaktoren einen langandauernden Einfluss auf ihre soziale und psychische Entwicklung haben. Zu den wichtigsten Einflussfaktoren gehören hierbei neben der Familie die Peergroup, die Schulsituation und die Nachbarschaft. Die große

Abhängigkeit der Lebensqualität von Kindern von ihrer Interaktion in verschiedensten sozialen Kontexten sollte deshalb bei der Entwicklung eines Messinstruments derselben berücksichtigt werden. (67) Eine Herausforderung beim Messen der Lebensqualität von Kindern mit schweren Entwicklungsstörungen ist die Tatsache, dass sie häufig nicht fähig sind, ihre Perspektive von der Qualität des Lebens verbal zum Ausdruck zu bringen, so dass man zwangsläufig auf die Sichtweise und Interpretation der Eltern bzw. nahestehender Bezugspersonen angewiesen ist (60).

1.3.2 Unterschiede etablierter Fragebögen zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern

Derzeit findet man eine Menge an Literatur, die die gesundheitsbezogene Lebensqualität in verschiedenen Krankheitsgruppen untersucht und es sind bereits einige generische sowie krankheitsspezifische Fragebögen etabliert (56). Neben dieser Unterscheidung kann man Fragebögen zur Lebensqualitätserfassung in Self- und Proxy-Fragebögen, sowie anhand ihrer inhaltlichen Dimensionen einteilen.

1.3.2.1 Generische versus krankheitsspezifische Fragebögen

Generische Fragebögen sind so konzipiert, dass sie von verschiedenen Bevölkerungsgruppen beantwortet werden können und somit für Vergleiche der gesundheitsbezogenen Lebensqualität zwischen Gruppen mit unterschiedlichen Voraussetzungen herangezogen werden können (59). Mit den generischen Fragebögen sind Vergleiche zwischen Patientengruppen verschiedener Erkrankungen sowie zwischen Patienten und gesunden Probanden möglich (54). Aufgrund ihrer Verallgemeinerbarkeit liefern sie jedoch eine oberflächlichere Einschätzung der Lebensqualität und weisen Schwächen bei der Identifikation krankheitsspezifischer Merkmale auf. Krankheitsspezifische Messinstrumente hingegen bieten eine klinisch relevantere Bewertung, die sich nach Symptomen, Problemen oder Nebeneffekten eines speziellen Leidens richtet und sind dadurch sensitiver in der Erkennung von Therapieeffekten. (59) Demnach zeichnet sich die Ansicht ab, dass beide Arten von Fragebögen in der Erfassung gesundheitsbezogener Lebensqualität bei Kindern mit chronischen Erkrankungen für eine umfassende Beurteilung Anwendung finden sollten (55). Eine dritte Version ist die der chronisch-generischen Lebensqualitätfragebögen, die Aspekte der HrQoL in den Vordergrund setzt, die bei verschiedenen chronischen Erkrankungen eine Rolle spielen (68). Der DISABKIDS® zum Beispiel stellt eine

Kombination dar, er besteht aus einem chronisch-generischen Kernmodul (DCGM-37) und verschiedenen krankheitsspezifischen Modulen, unter anderem einem Modul für Kinder mit Cerebralparese (CPM®) (68). Beispiele für generische Fragebögen sind die verschiedenen Versionen des KIDSCREEN® (58). CPCHILD® und CP QOL-Child® stellen Beispiele für krankheitsspezifische Lebensqualitätsfragebögen – in diesem Fall für Kinder mit Cerebralparese - dar (60, 69). In den letzten Jahren hat sich viel in der Entwicklung vor allem der krankheitsspezifischen Fragebögen getan, es gibt inzwischen unter anderem Fragebögen für Kinder mit Asthma, Epilepsie, onkologischen Erkrankungen, Diabetes mellitus, Cerebralparese, Arthritis und weitere; für viele andere Erkrankungen fehlen jedoch krankheitsspezifische Fragebögen noch, sodass auf generische Fragebögen zurückgegriffen werden muss (55, 60, 70, 71).

1.3.2.2 Self- versus Proxy-Fragebögen

Basierend auf der Erkenntnis, dass es teilweise große Unterschiede im Verständnis von Krankheit zwischen Kindern und ihren Eltern gibt, existiert inzwischen die weit verbreitete Meinung, dass Kinder - wenn immer möglich - selbst die Fragebögen zur Messung ihrer Lebensqualität beantworten sollten (70, 72). Dennoch besteht bisher ein Mangel an Messinstrumenten, die eine Selbstbeurteilung der Kinder möglich machen, vor allem für jüngere Kinder unter acht Jahren (70). Da eine mangelhafte Übereinstimmung zwischen Self- und Proxy-Bewertungen in der Erfassung der Lebensqualität von Kindern mit chronischen Erkrankungen festgestellt werden konnte, ist die Etablierung von Selbstbeurteilungsfragebögen für eine möglichst große Altersspanne das Ziel (55). Inzwischen gibt es Selbstbeurteilungsfragebögen für Kinder ab einem Alter von 5-6 Jahren (71). Da Eltern in ihrer Sicht der Lebensqualität von eigenen Vorstellungen, der Beobachtung anderer Kinder, ihren Erwartungen und Hoffnungen für das eigene Kind und ihrer psychischen Verfassung gelenkt werden, bestehen häufig Abweichungen zur Ansicht des Kindes (70). Dennoch gibt es Situationen, in denen die Kinder aufgrund zu jungen Alters, eingeschränkter kognitiver Fähigkeiten, Kommunikationsschwierigkeiten oder Verschlechterung des Gesundheitszustands nicht fähig sind, theoretische Fragen zu ihrer Lebensqualität adäquat zu beantworten und in denen man somit auf die Elternperspektive angewiesen ist und diese wertvolle Hinweise liefern kann (55, 59, 73). Es hat sich gezeigt, dass im Vergleich zu der anderer Stellvertreter, wie Lehrer oder Gesundheitsexperten, eine Proxy-Bewertung durch die Eltern zuverlässiger ist (59) und dass Proxy-

Einschätzungen vor allem bezüglich konkreter Symptome oder Probleme gute Ähnlichkeit zu der des Patienten aufweisen (73). Die zuletzt entwickelten generischen Fragebögen enthalten beides, eine Eltern- und eine Kinderversion zur Beantwortung der Fragen aus beiden Perspektiven, während gut 1/4 der krankheitsspezifischen Fragebögen weiterhin ausschließlich als Proxy-Fragebögen konzipiert ist (71).

1.3.2.3 Bandbreite der inhaltlichen Dimensionen

Auch wenn es etliche Ansichten dazu gibt, welche Aspekte des Lebens zu der Lebensqualität eines Menschen beitragen, so besteht Konsens darüber, dass sie multidimensionaler Natur ist und dass sie sich zumindest aus den Bereichen physischen, psychischen und sozialen Wohlbefindens zusammensetzt (65). Die Bedeutung dieser drei Bereiche lässt sich auch anhand der am häufigsten verwendeten Dimensionen generischer Lebensqualitätsfragebögen erkennen: neben Selbstwertgefühl, Körperbild und Unabhängigkeit zählen dazu körperliche Aktivität, die Gefühlslage, Schule und Freizeitverhalten. Laut einer Übersichtsarbeit von Solans et al. aus dem Jahr 2008 über die Messung gesundheitsbezogener Lebensqualität bewegt sich die Anzahl der Dimensionen in generischen Fragebögen zwischen 3 und 17 und bei krankheitsspezifischen Fragebögen zwischen 2 und 12. Als spezielle Dimensionen finden sich bei Letzteren demnach häufig die Kategorien ‚Symptome‘ und ‚Therapie‘. Da der Großteil aller Fragebögen zur Erfassung gesundheitsbezogener Lebensqualität von Kindern multidimensional aufgebaut ist, werden die Ergebnisse neben dem Gesamtscore meist in Untergruppen für die einzelnen abgefragten Dimensionen dargestellt, so dass auch Veränderungen in einzelnen Bereichen aufgezeigt werden können. (71)

1.4 Lebensqualität bei Kindern mit Cerebralparese

1.4.1 “Study of PARTicipation of Children with cerebral palsy Living in Europe”- SPARCLE

In der großangelegten zweiteiligen „Study of PARTicipation of Children with cerebral palsy Living in Europe“ (SPARCLE) wurde erstmals die Entwicklung der Lebensqualität von jungen Menschen mit Cerebralparese von der Kindheit bis in die Jugend mitverfolgt. Teil 1 der Studie war eine Querschnittsstudie in neun europäischen Zentren, die den Einfluss der Umwelt auf die Teilhabe und Lebensqualität von 8-12-

jährigen Kindern mit Cerebralparese - gemessen mit Hilfe von Life-H® und KIDSCREEN® - untersuchte. Es zeigte sich, dass die Lebensqualität für die meisten Aspekte des Lebens nicht mit dem Grad an Einschränkung assoziiert ist und deshalb wahrscheinlich im Wesentlichen durch soziale und umweltbedingte Faktoren bedingt ist. Aus diesem Grund besteht höchste Notwendigkeit die vollständige Teilhabe von Kindern mit Behinderung in der Gesellschaft zu fördern. Da Schmerz bei Kindern mit Cerebralparese häufig vorkommt und mit einer reduzierten Lebensqualität in allen Bereichen einhergeht, sollte der Wahrnehmung und Behandlung desselben große Priorität zugesprochen werden. Die Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese war im Durchschnitt in allen Bereichen vergleichbar mit der von gleichaltrigen Kindern der Grundpopulation, mit Ausnahme der Schulumgebung, in welcher Kinder mit Cerebralparese ein besseres Ergebnis zeigten. (74-76)

In Teil 2 der Studie wurden dieselben Kinder fünf Jahre später als Follow-Up nun als 13-17-jährige Jugendliche erneut mit Hilfe des KIDSCREEN®-Fragebogens zu ihrer Lebensqualität befragt. Jugendliche mit Cerebralparese zeigten lediglich in der Kategorie ‚soziale Unterstützung und Gleichaltrige‘ eine reduzierte Lebensqualität im Vergleich zur Grundpopulation, weshalb verstärkte Aufmerksamkeit auf die Förderung von Freundschaften mit Gleichaltrigen und die gesellschaftliche Integration im Übergang zur Jugend gelegt werden sollte. Ansonsten ist ihre Lebensqualität nicht niedriger. Die Assoziation der Lebensqualität von Jugendlichen zur Lebensqualität in der Kindheit, elterlichem Stress und kindlichen psychologischen Problemen war gering, zum Auftreten von Schmerz jedoch weiterhin stark, was erneut die Bedeutung einer adäquaten Schmerztherapie unterstreicht. (76)

1.4.2 “Caregiver Priorities and Child Health Index of Life with Disabilities”-CPCHILD®

1.4.2.1 Ursprung des Fragebogens: kanadische Version

Aufgrund des zum damaligen Zeitpunkt Fehlens eines validierten krankheitsspezifischen Fragebogens zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit schwerer Cerebralparese, entwickelte eine Arbeitsgruppe um Narayanan an der Universität von Toronto 2006 einen solchen Fragebogen mit dem Ziel, durch diesen den Wirkungsgrad verschiedener Interventionen abbilden zu können. Mit Hilfe der Empfehlungen einer Gruppe von Eltern und

Pflegekräften von Kindern mit schwerer Cerebralparese, sowie der Ratschläge von in der Behandlung dieser Kinder erfahrener Entwicklungsmediziner, Physiotherapeuten, Ergotherapeuten und Orthopäden und dem Vergleich mit anderen Fragebögen wurden die Items für diesen Fragebogen zusammengestellt. Nach mehreren Überarbeitungen resultierte schließlich der „Caregiver Priorities and Child Health Index of Life with Disabilities“ (CPCHILD®). Er ist zur Beantwortung durch eine dem Kind nahe stehende Bezugsperson (Elternteil oder Pflegekraft) gedacht und wurde für Kinder mit schweren Entwicklungsstörungen wie zum Beispiel nicht-gehfähiger Cerebralparese oder traumatischer Hirnschädigung, die nach dem GMFCS in Level IV oder V eingeteilt werden, konzipiert. Anschließend erfolgte Tests zeigten, dass der CPCHILD® es vermag, die von den Bezugspersonen betroffener Kinder für die Lebensqualität als wichtig erachteten Aspekte reliabel und valide zu messen. Die Bedeutung der jeweiligen Items des Fragebogens wurde von den Bezugspersonen als hoch erachtet, keines der Items wurde aufgrund nicht Erreichens des Grenzlevels ausgeschlossen. Zudem war ein nachweislicher Unterschied der CPCHILD®-Scores abhängig von den GMFCS-Leveln sichtbar. (27, 60)

1.4.2.2 Deutsche Fragebogenversion

Um den CPCHILD® auch in Deutschland verwenden zu können, wurde er mit Genehmigung der Entwickler ins Deutsche übersetzt. Für die deutsche Version des Fragebogens konnten Jung et al. in einer Studie mit Zunahme der körperlichen Beeinträchtigung (Zunahme des GMFCS-Levels) der Patienten abnehmende CPCHILD®-Scores beobachten und eine gute, wenn auch etwas geringere, Test-Retest-Reliabilität zeigen, als sie bei der Originalversion nachgewiesen worden war. Zusätzlich zu GMFCS-Level IV und V schlossen sie auch Kinder des GMFCS-Levels III ein und stellten hierbei fest, dass der Fragebogen gut zwischen gehfähigen (GMFCS-Level III) und nicht gehfähigen (GMFCS-Level IV und V) Patienten unterscheiden konnte. Sowohl der CPCHILD®-Gesamtscore, als auch die die motorische Funktion betreffenden Teilbereiche korrelierten gut mit dem GMFCS-Level. (77)

1.4.2.3 Struktur und Bearbeitung des Fragebogens

Der CPCHILD® ist ein Messinstrument zur Beurteilung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit schwerer Behinderung aus der Perspektive ihrer Eltern bzw. Bezugspersonen. Der Fragebogen kann auch unter Miteinbeziehung des Kindes

beantwortet werden, wenn dieses in der Lage ist, ihn zu verstehen und seine Antworten dem Erwachsenen gegenüber zu äußern. Sollte dies möglich sein, kann der Fragebogen eventuell zusätzlich von dem Kind selbständig ausgefüllt werden. Das Ausfüllen eines Fragebogens nimmt circa 20-40 min. in Anspruch. Die in deutscher Sprache vorliegende Version des CPCHILD® besteht aus 37 Fragen, die sechs Teilbereichen zugeordnet werden können (Anzahl der Fragen): 1. Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens: *ADL* (9), 2. Positionierung, Transfer und Mobilität: *PTM* (8), 3. Wohlbefinden und Gefühle: *CE* (9), 4. Kommunikation und soziale Interaktion: *CSI* (7), 5. Gesundheit: *Health* (3), 6. Lebensqualität insgesamt: *Overall QoL* (1).

		Deutsche Version des CPCHILD®	Englische Version des CPCHILD®	Abkürzung
CPCHILD®-Section (Fragenanzahl)	1 (9)	Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens	Activities of Daily Living	ADL
	2 (8)	Positionierung, Transfer & Mobilität	Positioning, Transferring & Mobility	PTM
	3 (9)	Wohlbefinden & Gefühle	Comfort & Emotions	CE
	4 (7)	Kommunikation & soziale Interaktion	Communication & Social Interaction	CSI
	5 (3)	Gesundheit	Health	Health
	6 (1)	Lebensqualität insgesamt	Overall Quality of Life	Overall QoL
		Gesamtscore	Total Score	

Tabelle 3: Aufbau des CPCHILD®-Fragebogens

Bei Items, die sich mit der Ausführung einer bestimmten Aufgabe oder Aktivität befassen, soll neben dem Schwierigkeitsgrad von 0 („nicht möglich“) bis 6 („völlig unproblematisch“) zusätzlich der Grad der vom Kind zur Durchführung der Aktivität benötigten Hilfestellung von 0 („vollständig“) bis 3 („unabhängig“) beurteilt werden. In der Kategorie „Wohlbefinden und Gefühle“ wird sowohl die Häufigkeit der Symptome von 0 („jeden Tag“) bis 5 („nie“) als auch ihre Intensität von 0 („sehr stark“) bis 3 („gar nicht“) eingestuft. Im siebten Teilbereich des Fragebogens werden die Eltern gebeten, die Bedeutung jedes der vorher abgefragten Themen für die Lebensqualität ihres Kindes

insgesamt anhand einer Skala von 0 („gar nicht wichtig“) bis 5 („am wichtigsten“) zu bewerten. (27, 77)

2 Fragestellung

Nachdem in mehreren Studien der positive Einfluss des ROBERT-Programms auf die motorische Funktion bei Kindern mit Cerebralparese nachgewiesen wurde (47-49, 51), ist die Fragestellung dieser Arbeit, ob sich durch das ROBERT-Programm neben den motorischen Fortschritten auch ein Effekt auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität darstellen lässt. Als Maß zur Bewertung der HrQoL dient hierbei der CPCHILD® in deutscher Version. Insbesondere vermutet wird eine zu messende Auswirkung in den Teilbereichen 1 und 2 des Fragebogens ‚Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens‘ und ‚Positionierung, Transfer und Mobilität‘.

Ziel dieser Dissertation ist die Beantwortung folgender Fragen:

2.1 Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese - gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen?

Zeigt sich ebenso wie in vorangegangenen Studien eine Korrelation zwischen GMFCS-Level und CPCHILD®-Score unter diesmaliger Miteinbeziehung von Kindern des GMFCS-Level II?

2.2 Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten?

Inwieweit verändern sich die CPCHILD®-Scores im Abstand von drei Monaten unter Fortführung der Standardtherapie ohne dazwischenliegendes ROBERT-Programm?

2.3 Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese?

Lässt sich nach Teilnahme am ROBERT-Programm eine Veränderung der einzelnen CPCHILD®-Section-Scores oder/und des Gesamtscores feststellen?

2.3.1 Sechs bis neun Wochen nach Therapie?

2.3.2 Drei bis vier Monate nach Therapie?

2.4 Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese

Wie verhält sich der CPCHILD®-Score im Langzeitverlauf einzelner exemplarisch herausgegriffener Patienten und machen sich hierbei persönliche sowie klinische Ereignisse im Leben des Patienten bemerkbar?

3 Methodik

3.1 Studiendesign

Gegenstand dieser wissenschaftlichen Arbeit ist eine prospektive, nicht randomisierte, kontrollierte Kohortenstudie zur Erfassung des Einflusses eines vollautomatisierten Laufbandtrainings auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese. Die Einschätzung der HrQoL wurde anhand der Beantwortung der deutschen Version des CPCHILD®-Fragebogens durch die Eltern betroffener Kinder vorgenommen.

3.2 Patientenkollektiv

Als Teilnehmer der Studie wurden Patienten der Motorik- und Interventionsambulanz des integrierten sozialpädiatrischen Zentrums München im Dr. von Haunerschen Kinderspital rekrutiert, die zum Zeitpunkt der ersten Fragebogenerhebung zwischen vier und siebzehn Jahre alt waren und an einer bilateralen Cerebralparese der GMFCS-Level II bis IV litten. Kinder, bei denen im Rahmen des Therapiekonzepts die Teilnahme am ROBERT-Programm geplant war, wurden mit Einverständnis der Eltern als Kandidaten für die Studie herangezogen. Für die Kontrollgruppe wurden Patienten der Sprechstunde befragt, die in den folgenden drei Monaten laut Therapieplan kein ROBERT-Programm, sondern weiterhin ihre Standardtherapie erhalten sollten.

Als Ausschlusskriterien galten die im Handbuch zur Lokomattherapie aufgelisteten Kontraindikationen: u.a. ausgeprägte fixierte Kontrakturen, ossäre Instabilität, kardiorespiratorische Insuffizienz, schwere kognitive Defizite und Unfähigkeit Schmerzen und Missempfindungen mitzuteilen (78).

3.3 Studienablauf

Nach Prüfung der ethischen Unbedenklichkeit erteilte die Ethikkommission der medizinischen Fakultät der Ludwig-Maximilians-Universität München die Erlaubnis zur Durchführung beschriebener Studie (Ethikvotum Nr. 364-14). Nach Aufklärung und Zustimmung der Eltern und Kinder zur freiwilligen Teilnahme an der Studie und zur Verwendung der klinischen Daten in pseudonymisierter Form wurde den Eltern der CPCHILD®-Fragebogen in deutscher Version ausgehändigt. Je nach Mitarbeitsfähigkeit füllte ein Elternteil allein oder in Beratschlagung mit dem Kind den Fragebogen aus, dies nahm im Durchschnitt 15-20 Minuten in Anspruch. Von einzelnen

Kindern gab es bereits vor Beginn der geplanten Studie, im Rahmen der klinischen Arbeit, beantwortete CPCHILD®-Fragebögen, diese wurden nach nachträglichem Einholen des Einverständnisses der Eltern zur Abbildung von Langzeitverläufen der CPCHILD®-Scores in die Auswertung miteinbezogen. Die Studienteilnehmer der ROBERT-Gruppe wurden um Beantwortung des Fragebogens vor Beginn des dreiwöchigen Lokomattherapieblocks (ROBERT: bestehend aus zwölf Therapieeinheiten mit je 30-60 min. effektiver Trainingszeit), sechs bis neun Wochen später bzw. drei bis vier Monate später gebeten. In der Kontrollgruppe fand die Bearbeitung des CPCHILD® zwei Mal im Abstand von drei Monaten unter der üblichen Standardtherapie ohne dazwischenliegendes ROBERT-Programm statt.

3.4 Aufbereitung der Daten

Nach Pseudonymisierung erfolgte die Eingabe der Fragebogenergebnisse in eine zur Auswertung des CPCHILD® konfigurierte Exceltabelle. Hierbei wurde nach dem ‚CPCHILD® Manual & Interpretation Guide‘ vorgegangen (27). Die Scores für jeden Teilbereich und den Gesamtwert sind standardisiert und bewegen sich zwischen 0 (am schlechtesten) und 100 (am besten). Zur Auswertung des CPCHILD® werden vier Schritte durchlaufen:

1. Bestimmung des Rohwerts jedes Items als Summe aus Schwierigkeitsgrad + Hilfestellung bzw. Häufigkeit + Intensität
2. Berechnung des normierten Itemscores durch Teilen des Rohwerts durch den höchstmöglichen Itemwert und Multiplikation mit 100
3. Durchschnitt der normierten Scores aller Items eines Teilbereichs als Sectionscore
4. Durchschnitt aller normierten Itemscores als Gesamtscore

Als Besonderheit ist anzumerken, dass der höchstmögliche Score in der Kategorie ‚Wohlbefinden und Gefühle‘ 7 ist und nicht 8, wie es scheinen könnte, da davon ausgegangen wird, dass es bei Ankreuzen der Antwortmöglichkeit 5 („nie“) für Häufigkeit keinen passenden Intensitätsgrad geben kann und der Intensitätsgrad 3 („gar nicht“) nur zur Vermeidung von Verwirrung für Personen, die als Häufigkeit 5 auswählen, angeboten wird. Item 36, die Anzahl der eingenommenen Medikamente wird in umgekehrter Reihenfolge bewertet, d.h. eine Angabe von 0 Medikamenten ergibt einen maximalen Score von 5 und eine Angabe von ≥ 5 Medikamenten einen Score von 0. Fehlt der Wert eines Items, wird dieses Item komplett von der Analyse

ausgeschlossen und nicht mit 0 bewertet. Die einzige Ausnahme hierfür bildet der Fall, dass für die Häufigkeit in der Kategorie ‚Wohlbefinden und Gefühle‘ eine 5 („nie“) ausgewählt wurde und bei derselben Frage kein Intensitätsgrad angegeben wurde. In diesem Fall kann ein Gesamtscore von 7 für dieses Item angenommen werden, vorausgesetzt in dem Fragebogen wurden bei anderen Fragen beide Antwortkategorien ausgefüllt. (27)

Neben den CPCHILD®-Ergebnissen wurden weitere patientenspezifische und klinische Daten wie Alter, Geschlecht, GMFCS-Level und Ergebnisse verschiedener motorischer Tests in einer Datenbank gesammelt und anschließend mittels des Statistikprogramms IBM SPSS Statistics Version 23 ausgewertet.

3.5 Datenanalyse und Statistik

3.5.1 Beschreibung des Patientenkollektivs

Zur genaueren Beschreibung des Patientenkollektivs wurden die Häufigkeit sowie prozentualen Anteile demografischer und klinischer Daten der verschiedenen Studiengruppen gesammelt und in Tabellenform dargestellt.

3.5.2 Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese – gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen?

Um den Einfluss des Schweregrads der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese in unserer Studiengruppe zu untersuchen, wurde von jedem Patienten exemplarisch der erste vorhandene CPCHILD®-Fragebogen verwendet. Zunächst wurden mittels deskriptiver Statistik die Mittelwerte und 95%-Konfidenzintervalle der CPCHILD®-Scores je GMFCS-Level getrennt dargestellt. Die Überprüfung auf Normalverteilung nach Shapiro-Wilk ergab für die beiden Sections *ADL* und *PTM* ein positives Ergebnis, für die restlichen Sections sowie den *Total Score* sei keine Normalverteilung anzunehmen. Daher wurde die statistische Signifikanz einer eventuellen Gruppenungleichheit mit Hilfe des parameterfreien Kruskal-Wallis-Tests überprüft. Nach Darstellung der Ergebnisse des *Total Scores* in Form von Boxplots getrennt nach GMFCS-Level wurden der für ordinalskalierte Variablen konzipierte

Korrelationskoeffizient Kendall-Tau-b sowie seine zweiseitige Signifikanz berechnet, um die Korrelation zwischen GMFCS-Level und CPCHILD®-Scores zu bestimmen. Dabei wurden sowohl der Gesamtscore als auch die einzelnen Sectionscores des CPCHILD® in die Berechnung einbezogen.

3.5.3 Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten?

Zur Überprüfung einer Änderung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität unter Standardtherapie wurde der CPCHILD®-Fragebogen in einer Studiengruppe zwei Mal im Abstand von drei Monaten ohne dazwischenliegendes ROBERT-Programm beantwortet und die Ergebnisse beider Zeitpunkte miteinander verglichen. Es wurden sowohl der Gesamtscore als auch die einzelnen Sectionscores des CPCHILD® betrachtet. Zunächst wurden die Ergebnisse grafisch mittels Boxplots im Vergleich dargestellt. Zudem wurden Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts und Standardabweichung der Gruppe vor und nach Therapie gegenübergestellt. Die Daten der einzelnen Gruppen wurden jeweils mittels Shapiro Wilk auf Normalverteilung getestet. Da in allen Studiengruppen für die Daten einiger Sections keine Normalverteilung anzunehmen war, erfolgte die Überprüfung auf statistische Signifikanz eines Unterschieds mit Hilfe des Wilcoxon-Vorzeichenrangtests für verbundene Stichproben.

3.5.4 Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese?

Zur Berechnung eines Einflusses des ROBERT-Programms auf die HrQoL wurden verschiedene Gruppen gebildet, in denen jeweils vor Therapie und direkt nach Therapie, sechs bis neun Wochen nach Therapie oder drei bis vier Monate nach Therapie die Ergebnisse des CPCHILD®-Fragebogens miteinander verglichen wurden. Es wurden sowohl der Gesamtscore als auch die einzelnen Sectionscores des CPCHILD® betrachtet. Zunächst wurden die Ergebnisse grafisch mittels Boxplots im Vergleich vor und nach ROBERT dargestellt. Zudem wurden Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts und Standardabweichung der Gruppe vor und nach Therapie gegenübergestellt. Die Daten der einzelnen Gruppen wurden jeweils mittels Shapiro Wilk auf Normalverteilung getestet. Da in allen Studiengruppen für die Daten einiger

Sections keine Normalverteilung anzunehmen war, erfolgte die Überprüfung auf statistische Signifikanz eines Unterschieds mit Hilfe des Wilcoxon-Vorzeichenrangtests für verbundene Stichproben.

3.5.5 Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese

Von einzelnen Patienten wurde zu mehreren Zeitpunkten der CPCHILD®-Fragebogen bearbeitet um einen Langzeitverlauf abbilden zu können. Die Ergebnisse wurden grafisch dargestellt und durch klinische und persönliche Ereignisse ergänzt, um Einflüsse des ROBERT-Programms oder etwaiger anderer Veränderungen im Alltag des Kindes auf die HrQoL erkennen zu können und einen Eindruck von der Schwankungsweite des CPCHILD®-Scores zu erlangen.

4 Ergebnisse

4.1 Das Patientenkollektiv

Im Zeitraum der Datenerhebung wurden 109 Fragebögen von den Eltern 41 verschiedener Kinder ausgefüllt. Von Kindern, über die nur zu einem Zeitpunkt eine Beantwortung des Fragebogens durchgeführt wurde, bzw. wenn die Zeitpunkte aufgrund von Verzögerungen nicht innerhalb unserer vorher festgelegten Studienzeiträume lagen, konnten wir aufgrund fehlender Vergleichsmöglichkeiten die Fragebögen nicht in die Auswertung mit einbeziehen. Somit wurden bei der Auswertung insgesamt 94 Fragebögen von 31 verschiedenen Kindern berücksichtigt.

Tabelle 3 gibt einen Überblick über die demografischen und klinischen Daten des Patientenkollektivs. Unter den 31 eingeschlossenen Kindern waren 14 Jungen (45,2%) und 17 Mädchen (54,8%). Das durchschnittliche Alter zum Zeitpunkt der ersten Datenerhebung betrug 92 Monate, das Minimum lag bei 48 Monaten und das Maximum bei 210 Monaten. Als Diagnose fand sich bei 24 Kindern eine bilateral spastische Cerebralparese, bei 3 Kindern eine bilateral spastisch-dyskinetische Cerebralparese, bei 3 Kindern eine bilateral dyskinetische Cerebralparese und bei einem Kind eine dyskinetisch-ataktische Cerebralparese. Als Teilnehmer der Studie wurden Kinder unterschiedlicher Schweregrade der körperlichen Beeinträchtigung entsprechend der GMFCS-Level II, III und IV herangezogen, wobei 13 Patienten (41,9%) GMFCS-Level II zuzuordnen waren, 12 Kinder (38,7%) GMFCS-Level III und 6 Kinder (19,4%) GMFCS-Level IV.

		Absolut (in Prozent)
Geschlecht	Weiblich	17 (54,8%)
	Männlich	14 (45,2%)
Alter zum Zeitpunkt der ersten Datenerhebung	Durchschnitt	92 Monate
	Minimum	48 Monate
	Maximum	210 Monate
Diagnose	Bilateral spastische Cerebralparese	24 (77,4%)
	Bilateral spastisch-dyskinetische Cerebralparese	3 (9,7%)
	Bilateral dyskinetische Cerebralparese	3 (9,7%)
	Dyskinetisch-ataktische Cerebralparese	1 (3,2%)
GMFCS-Level	II	13 (41,9%)
	III	12 (38,7%)
	IV	6 (19,4%)

Tabelle 4: Demografische und klinische Eigenschaften des Patientenkollektivs

Eine Beantwortung des CPCHILD®-Fragebogens vor und direkt nach dem ROBERT-Programm wurde von fünf Kindern im Rahmen der klinischen Arbeit durchgeführt. Darunter waren zwei Mädchen (40,0%) und drei Jungen (60,0%), zwei Kinder (40,0%) des GMFCS-Level II und drei Kinder (60,0%) des GMFCS-Level III. Bei einer Gruppengröße von $n = 5$ und damit einhergehend sehr weiten 95%-Konfidenzintervallen ist die Aussagekraft dieser Ergebnisse sehr kritisch zu betrachten, weshalb davon abgesehen wurde, diese im Folgenden in die Auswertung miteinzubeziehen. Zur Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT gehörten 15 Kinder, wovon neun Mädchen (60,0%) und sechs Jungen (40,0%) waren. Hiervon waren sechs Kinder (40,0%) GMFCS-Level II zuzuordnen, acht Kinder (53,3%) GMFCS-Level III und ein Kind (6,7%) GMFCS-Level IV. In der Gruppe mit CPCHILD®-Befragung drei bis vier Monate nach Ende des ROBERT-Programms fanden sich 14 Kinder, davon fünf Mädchen (35,7%) und neun Jungen (64,3%). Hiervon waren zehn Kinder (71,4%) GMFCS-Level II zugeordnet und vier Kinder (28,6%) GMFCS-Level III. In die als Kontrollgruppe genutzte Studiengruppe von Kindern mit Fortführung der Standardtherapie und zweimaligem Beantworten des CPCHILD® im Abstand von drei Monaten ohne

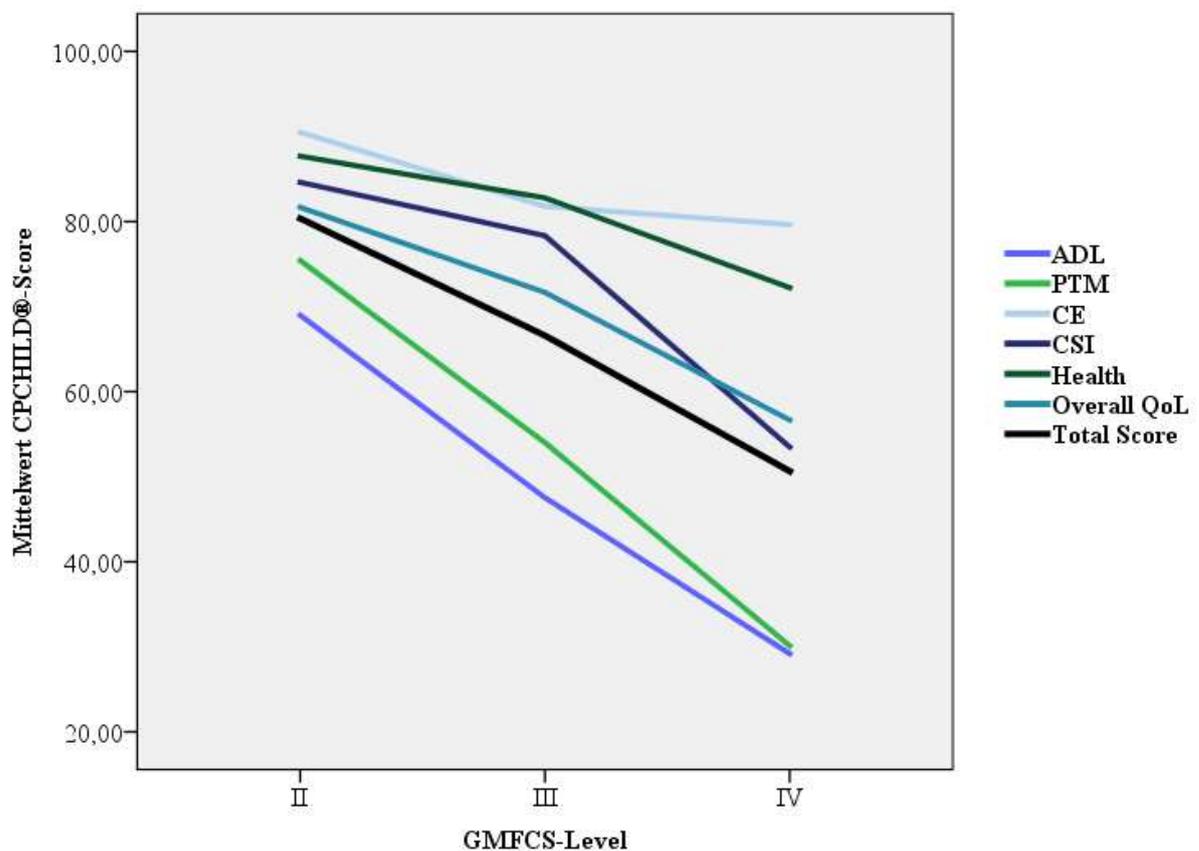
dazwischenliegendes ROBERT-Programm wurden 13 Kinder eingeschlossen, darunter waren neun Mädchen (69,2%) und vier Jungen (30,8%). Die Zuordnung zu den GMFCS-Leveln ergab hierbei drei Kinder (23,1%) des GMFCS-Level II und jeweils fünf Kinder (38,5%) der GMFCS-Level III und IV.

CPCHILD® vor und direkt nach ROBERT: n=5	Geschlecht	Weiblich	2 (40,0%)
		Männlich	3 (60,0%)
	GMFCS-Level	II	2 (40,0%)
		III	3 (60,0%)
IV		0	
CPCHILD® vor und 6-9 Wochen nach ROBERT: n=15	Geschlecht	Weiblich	9 (60,0%)
		Männlich	6 (40,0%)
	GMFCS-Level	II	6 (40,0%)
		III	8 (53,3%)
IV		1 (6,7%)	
CPCHILD® vor und 3-4 Monate nach ROBERT: n=14	Geschlecht	Weiblich	5 (35,7%)
		Männlich	9 (64,3%)
	GMFCS-Level	II	10 (71,4%)
		III	4 (28,6%)
IV		0	
CPCHILD® im Abstand von 3 Monaten unter Standardtherapie: n= 13	Geschlecht	Weiblich	9 (69,2%)
		Männlich	4 (30,8%)
	GMFCS-Level	II	3 (23,1%)
		III	5 (38,5%)
IV		5 (38,5%)	

Tabelle 5: Übersicht Studiengruppen

4.2 Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese – gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen?

Zunächst wurden die Mittelwerte des CPCHILD®-Gesamtscores und der verschiedenen CPCHILD®-Sectionscores für die drei GMFCS-Level getrennt dargestellt. Hierbei zeigte sich, dass die Mittelwerte der CPCHILD®-Scores aller Sections mit zunehmendem GMFCS-Level abnehmen. Die Differenz der Mittelwerte ist in den Sections *ADL* und *PTM* am größten (siehe Abbildung 2 und Tabelle 6).



CPCHILD®-Scores: ADL = Körperpflege / Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore

Abbildung 2: Mittelwerte der CPCHILD®-Scores getrennt nach GMFCS-Level

Mit Betrachtung der 95%-Konfidenzintervalle der Mittelwerte der CPCHILD®-Scores der einzelnen GMFCS-Level ist eine Trennschärfe für die Section *PTM* zwischen allen drei untersuchten GMFCS-Leveln zu erkennen. Für die Section *ADL* und den

Gesamtscore zeigt sich zwischen den 95%-Konfidenzintervallen der Mittelwerte der GMFCS-Level III und IV bzw. II und III eine geringe Überlappung bei ansonsten ebenso nachgewiesener Trennschärfe (siehe Tabelle 6).

	GMFCS-Level					
	n	II	n	III	n	IV
ADL	13	68,97 (60,49-77,45)	12	47,53 (37,16-57,90)	6	29,20 (18,53-39,86)
PTM	13	75,40 (67,11-83,70)	12	54,00 (42,88-65,12)	6	30,13 (17,58-42,67)
CE	13	90,48 (82,90-98,05)	12	81,78 (65,93-97,63)	6	79,63 (70,85-88,41)
CSI	13	84,62 (80,79-88,45)	12	78,33 (68,00-88,67)	6	53,49 (32,48-74,51)
Health	13	87,69 (81,35-94,03)	12	82,78 (75,02-90,54)	6	72,22 (56,63-87,81)
Overall QoL	12	81,67 (71,59-91,74)	12	71,67 (56,87-86,46)	6	56,67 (40,87-72,47)
Total Score	13	80,35 (74,97-85,74)	12	66,59 (56,84-76,34)	6	50,64 (44,86-56,43)
Mittelwert und 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts (Untergrenze-Obergrenze)						
CPCHILD®-Scores: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore						

Tabelle 6: Mittelwerte und 95%-Konfidenzintervalle der CPCHILD®-Scores getrennt nach GMFCS-Level

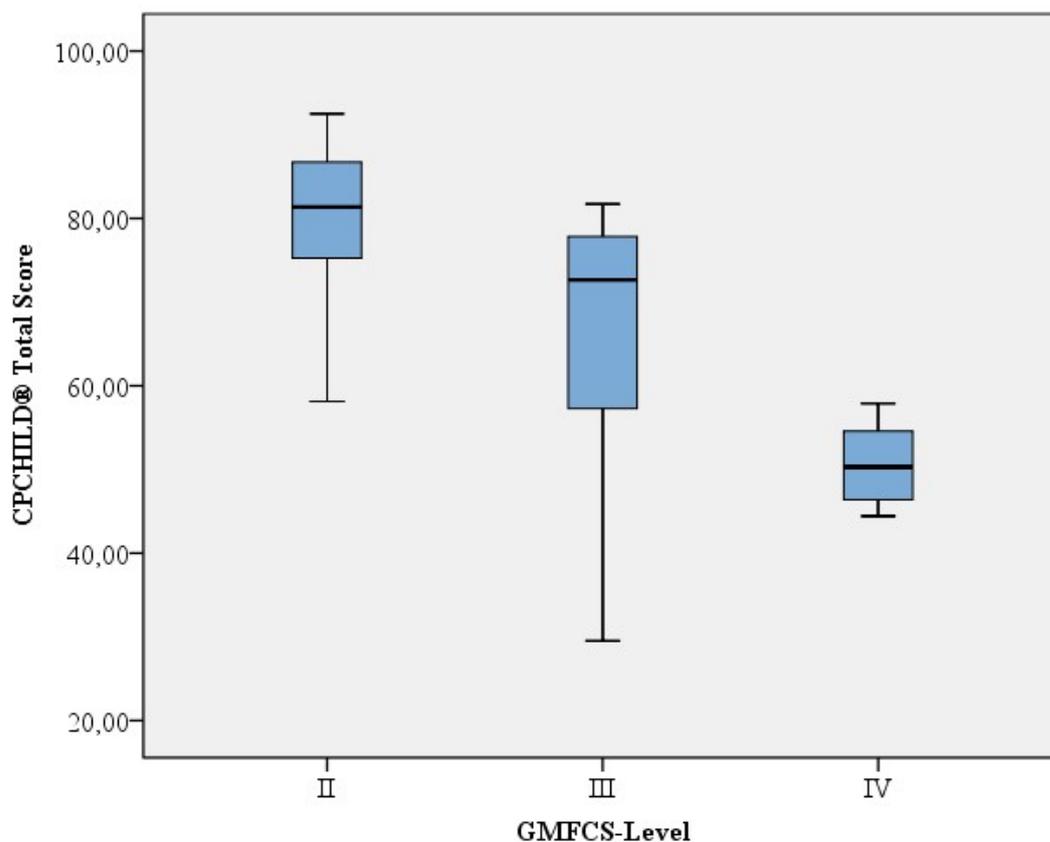
Die Daten wurden mittels Shapiro Wilk auf Normalverteilung getestet. Hierbei zeigte sich, dass für die Sections *ADL* und *PTM* Normalverteilung anzunehmen ist, für die anderen Teilbereiche des CPCHILD®-Fragebogens jedoch nicht, weshalb primär nicht-parametrische Tests angewandt wurden.

Zur Varianzanalyse wurde der parameterfreie Kruskal-Wallis-Test für unabhängige Stichproben durchgeführt. Er ergab auf dem 0,05 Niveau signifikante Unterschiede der CPCHILD®-Scores der Sections *ADL*, *PTM*, *CE*, *CSI* und *Total Score* in den nach GMFCS-Level (II-IV) sortierten Gruppen (siehe Tabelle 7).

		CPCHILD®						
		ADL*	PTM*	CE*	CSI*	Health	Overall QoL	Total Score*
GMFCS-Level II-IV	Signifikanz	<0,01	<0,01	0,048	0,015	0,070	0,053	< 0,01
* Das Ergebnis des Kruskal-Wallis-Tests für unabhängige Stichproben ist auf dem 0,05-Niveau signifikant								
CPCHILD®: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore								

Tabelle 7: Kruskal-Wallis-Test der CPOCHILD®-Scores über die GMFCS-Level II-IV

Die Darstellung mittels Boxplots veranschaulicht den negativen Zusammenhang zwischen GMFCS-Level und CPOCHILD®-Gesamtscore (siehe Abbildung 3).



Boxplots zeigen Median, Interquartilsabstand (IQR) (Boxen), höchsten bzw. niedrigsten Datenpunkt innerhalb $Q_{0,75} + 1,5 \text{ IQR}$ bzw. $Q_{0,25} - 1,5 \text{ IQR}$ (Whiskers)

Abbildung 3: Boxplots der CPOCHILD®-Gesamtscores getrennt nach GMFCS-Level

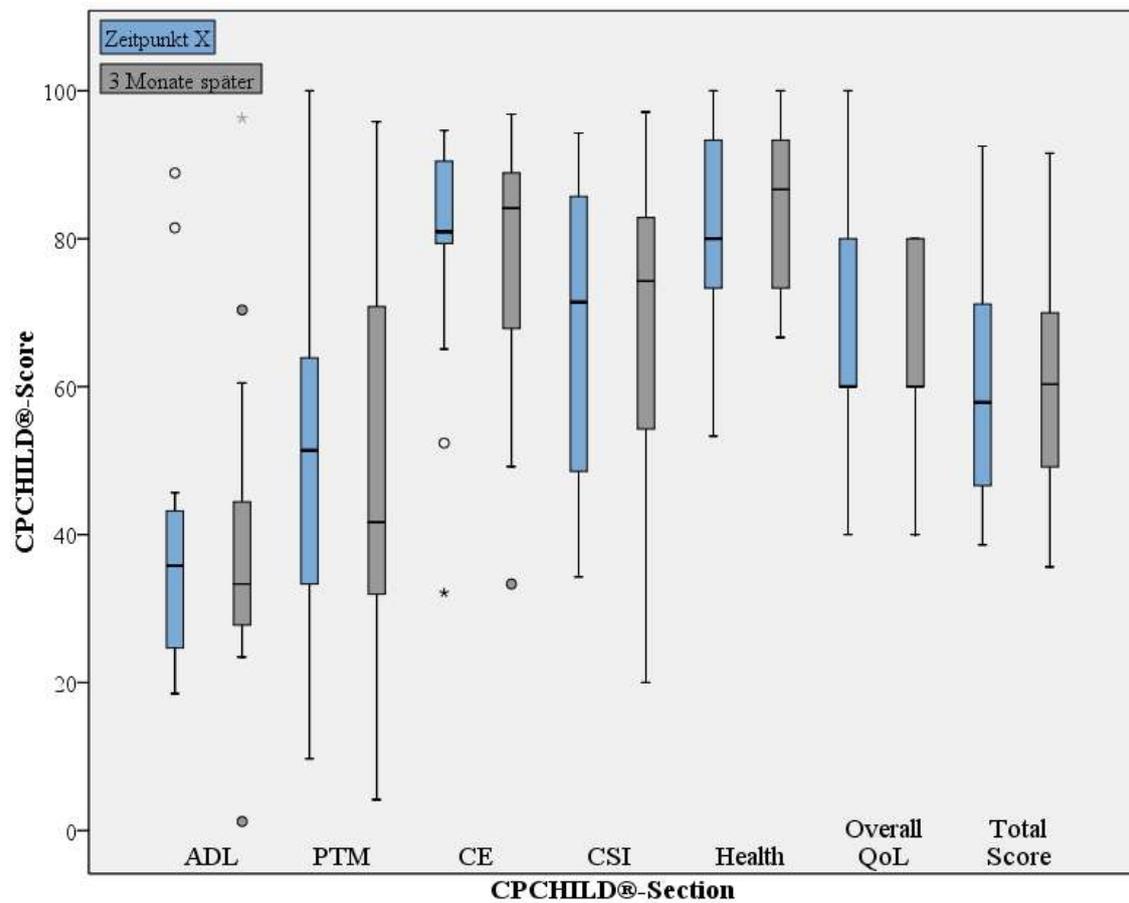
Die anzunehmende negative Korrelation beider Variablen bestätigte sich bei Bestimmung des Rangkorrelationskoeffizienten Kendall-Tau-b, welcher mit einem Wert von $\tau = -0,615$ einen deutlichen negativen Zusammenhang zwischen dem GMFCS-Level und dem Ergebnis des CPCHILD®-Gesamtscores aufzeigt. Ebenso zwischen dem GMFCS-Level und den CPCHILD®-Sectionscores *ADL* und *PTM* ergab sich mit Werten von $\tau = -0,630$ und $\tau = -0,605$ eine auf dem 0,01 Niveau signifikante, deutliche negative Korrelation. Für die anderen Teilbereiche des CPCHILD®-Fragebogens *CE*, *CSI*, *Health* und *Overall QoL* ergab sich eine geringe negative Korrelation zum GMFCS-Level (siehe Tabelle 9).

		CPCHILD®						
		ADL	PTM	CE	CSI	Health	Overall QoL	Total Score
GMFCS-Level II-IV	τ	-0,630	-0,605	-0,340	-0,372	-0,353	-0,369	-0,615
	Sign. (2-seitig)	< 0,01	< 0,01	0,02	0,01	0,02	0,02	< 0,01
CPCHILD®: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore								

Tabelle 9: Korrelation zwischen GMFCS-Level und CPCHILD®-Scores nach Rangkorrelationskoeffizient Kendall-Tau-b (τ)

4.3 Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten?

In dieser Studiengruppe wurden zunächst mit Hilfe der deskriptiven Statistik der Gesamtscore sowie die einzelnen Sectionscores des CPCHILD® zu zwei Zeitpunkten unter Standardtherapie dargestellt. Abbildung 4 zeigt Boxplots mit Verteilung der CPCHILD®-Scores der einzelnen Sections und des Gesamtscores im Abstand von drei Monaten. In Tabelle 10 sieht man Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts und Standardabweichung im Vergleich der zwei Zeitpunkte der Fragebogenerhebung unter Standardtherapie. Es zeigte sich keine wesentliche Differenz zwischen den beiden Zeitpunkten (siehe Abbildung 4 und Tabelle 10).



CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore

Boxplots zeigen Median, Interquartilsabstand IQR (Boxen), höchsten bzw. niedrigsten Datenpunkt innerhalb $Q_{0,75} + 1,5 \text{ IQR}$ bzw. $Q_{0,25} - 1,5 \text{ IQR}$ (Whiskers), Ausreißer (Kreise), Extremwerte (Sternchen)

Abbildung 4: Boxplots der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie

	Zeitpunkt X					3 Monate später				
	n	MW	95%-KI des MW		SD	n	MW	95%-KI des MW		SD
			UG	OG				UG	OG	
ADL	13	39,79	26,58	53,00	21,87	13	39,85	25,26	54,44	24,14
PTM	13	51,40	36,43	66,38	24,78	13	49,64	32,42	66,86	28,50
CE	13	78,01	66,96	89,05	18,28	13	77,21	65,78	88,64	18,92
CSI	13	67,99	55,44	80,53	20,75	13	67,55	53,61	81,49	23,07
Health	13	82,56	74,25	90,87	13,75	13	84,10	76,65	91,55	12,33
Overall QoL	12	66,67	55,39	77,95	17,75	13	64,62	55,85	73,38	14,50
Total Score	13	61,21	51,39	71,02	16,25	13	60,57	50,03	71,12	17,45

MW = Mittelwert, 95%-KI des MW = 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts, UG = Untergrenze, OG = Obergrenze, SD = Standardabweichung
 CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore

Tabelle 10: Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall und Standardabweichung der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie

Aufgrund der nicht anzunehmenden Normalverteilung nach Shapiro-Wilk für die meisten Sections (*ADL*, *CE*, *CSI*, *Health*, *Overall QoL*) wurden die Ergebnisse mittels nicht-parametrischem Wilcoxon-Vorzeichenrangtest bei verbundenen Stichproben verglichen. Die Nullhypothese, es trete kein signifikanter Unterschied zwischen den Fragebogenergebnissen beider Zeitpunkte auf, ist hiernach für alle Teilbereiche sowie den Gesamtscore des CPCHILD® beizubehalten (siehe Tabelle 11).

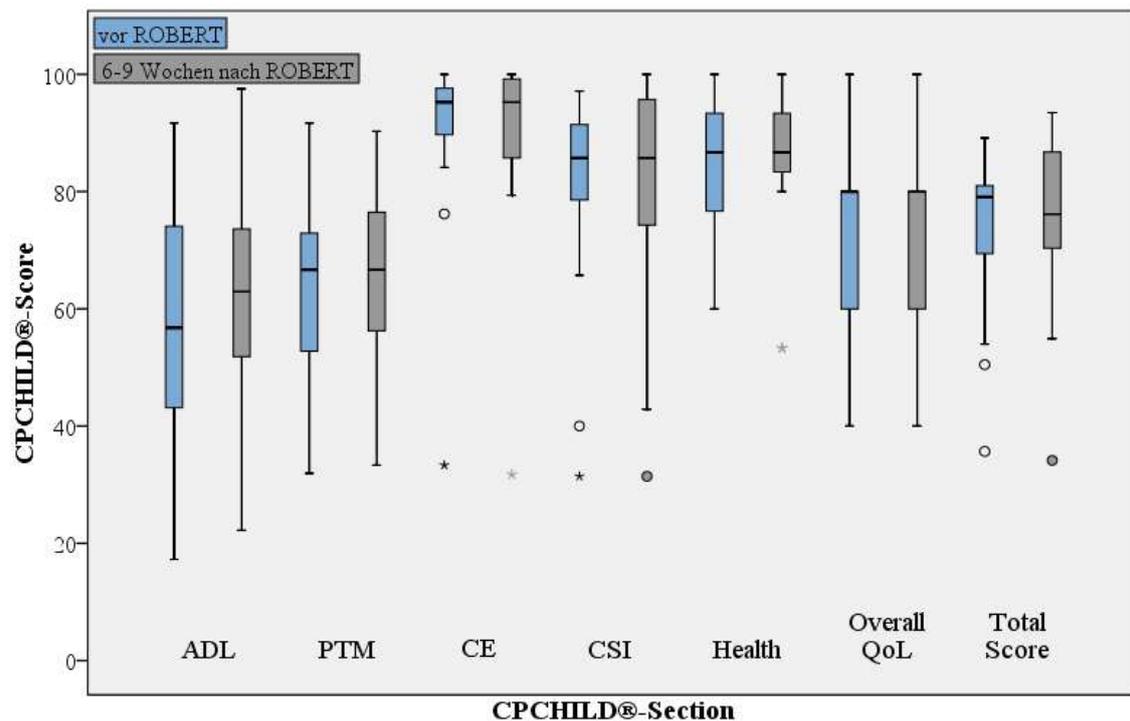
	p-Wert Wilcoxon-Vorzeichenrangtest
ADL	0,861
PTM	0,441
CE	0,972
CSI	0,919
Health	0,507
Overall QoL	0,655
Total Score	0,650
CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/ Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore	

Tabelle 11: Wilcoxon-Vorzeichenrangtest der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie

4.4 Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese?

4.4.1 Sechs bis neun Wochen nach Therapie

Mittels deskriptiver Statistik wurden zunächst die CPCHILD®-Ergebnisse im Vergleich vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT dargestellt. Abbildung 5 zeigt Boxplots mit Verteilung der Sectionscores und des Gesamtscores vor und nach ROBERT. In Tabelle 12 sind Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts und Standardabweichung der verschiedenen CPCHILD®-Scores im Vergleich vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT dargestellt. Bei Betrachtung der Mittelwerte fällt sechs bis neun Wochen nach ROBERT eine Zunahme der CPCHILD®-Scores in den Kategorien *ADL*, *PTM*, *CE*, *CSI* und *Health* sowie im Gesamtscore auf. Die 95%-Konfidenzintervalle der Ergebnisse beider Zeitpunkte weisen jedoch in allen Teilbereichen und im Gesamtscore bei entsprechend kleiner Gruppengröße eine Überlappung auf (siehe Abbildung 5 und Tabelle 12).



CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore

Boxplots zeigen Median, Interquartilsabstand IQR (Boxen), höchsten bzw. niedrigsten Datenpunkt innerhalb $Q_{0,75} + 1,5 \text{ IQR}$ bzw. $Q_{0,25} - 1,5 \text{ IQR}$ (Whiskers), Ausreißer (Kreise), Extremwerte (Sternchen)

Abbildung 5: Boxplots der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT

	Vor ROBERT					6-9 Wochen nach ROBERT				
	n	MW	95%-KI des MW		SD	n	MW	95%-KI des MW		SD
			UG	OG				UG	OG	
ADL	15	56,56	43,98	69,15	22,72	15	61,48	49,62	73,36	21,42
PTM	15	62,32	52,99	71,66	16,86	15	64,81	54,96	74,67	17,80
CE	15	89,31	80,05	98,58	16,73	15	89,42	79,76	99,07	17,44
CSI	15	79,52	68,76	90,29	19,44	15	80,57	69,10	92,05	20,72
Health	15	84,00	77,05	90,95	12,55	15	85,78	77,66	93,90	14,66
Overall QoL	15	70,67	58,93	82,41	21,20	15	68,00	57,92	78,08	18,21
Total Score	15	72,71	64,33	81,09	15,13	15	74,82	65,97	83,68	15,99

MW = Mittelwert, 95%-KI des MW = 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts, UG = Untergrenze, OG = Obergrenze, SD = Standardabweichung
 CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore

Tabelle 12: Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall und Standardabweichung der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT

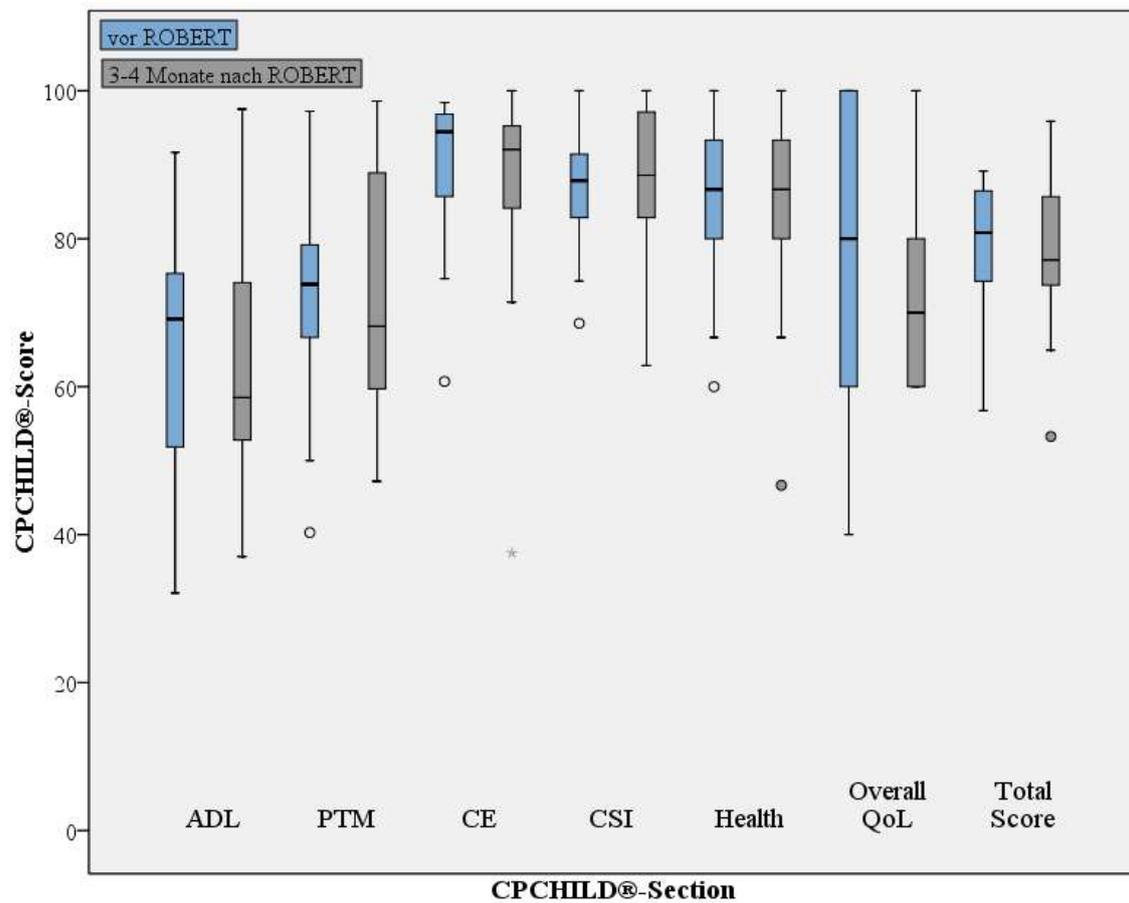
Laut Shapiro-Wilk ist für die Ergebnisse der CPCHILD®-Sections *ADL* und *PTM* in der Studiengruppe mit Befragung vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT Normalverteilung anzunehmen. Da in den übrigen Gruppen die Normalverteilungsannahme abzulehnen ist, wurde zur Signifikanztestung der nicht-parametrische Wilcoxon-Vorzeichenrangtest bei verbundenen Stichproben durchgeführt. Dieser ergab für den *Total Score* sowie die Unterkategorie *ADL* eine auf dem 0,05 Niveau signifikante Differenz vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT (siehe Tabelle 13). In beiden Kategorien waren die CPCHILD®-Scores nach ROBERT-Programm signifikant größer als vorher.

	p-Wert Wilcoxon-Vorzeichenrangtest
ADL*	0,023
PTM	0,706
CE	0,783
CSI	0,462
Health	0,501
Overall QoL	0,527
Total Score*	0,036
*Das Ergebnis des Wilcoxon-Vorzeichenrangtests bei verbundenen Stichproben ist auf dem 0,05 Niveau signifikant	
CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/ Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore	

Tabelle 13: Wilcoxon-Vorzeichenrangtest der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT

4.4.2 Drei bis vier Monate nach Therapie

Auch in der Studiengruppe mit Ausfüllen des CPCHILD®-Fragebogens drei bis vier Monate nach ROBERT wurden mit Hilfe der deskriptiven Statistik die Ergebnisse vor und nach ROBERT verglichen. In Abbildung 6 sieht man Boxplots mit Verteilung der CPCHILD®-Ergebnisse der einzelnen CPCHILD®-Sections und des Gesamtscores im Vergleich vor und drei bis vier Monate nach ROBERT. Tabelle 14 zeigt Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts und Standardabweichung der verschiedenen CPCHILD®-Scores zu beiden Zeitpunkten. Es zeigte sich keine wesentliche Differenz der Mittelwerte vor und nach Therapie. Die 95%-Konfidenzintervalle der Ergebnisse beider Zeitpunkte überlappten sich deutlich (siehe Abbildung 6 und Tabelle 14).



CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore

Boxplots zeigen Median, Interquartilsabstand IQR (Boxen), höchsten bzw. niedrigsten Datenpunkt innerhalb $Q_{0,75} + 1,5 \text{ IQR}$ bzw. $Q_{0,25} - 1,5 \text{ IQR}$ (Whiskers), Ausreißer (Kreise), Extremwerte (Sternchen)

Abbildung 6: Boxplots der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und drei bis vier Monate nach ROBERT

	Vor ROBERT					3-4 Monate nach ROBERT				
	n	MW	95%-KI des MW		SD	n	MW	95%-KI des MW		SD
			UG	OG				UG	OG	
ADL	14	65,46	55,69	75,22	16,91	14	63,61	52,53	74,69	19,19
PTM	14	71,80	62,74	80,87	15,70	14	72,36	63,04	81,68	16,14
CE	14	89,14	83,03	95,26	10,59	14	87,02	77,64	96,40	16,24
CSI	14	87,25	82,36	92,14	8,47	14	87,75	82,06	93,45	9,86
Health	14	84,76	78,28	91,24	11,22	14	83,81	75,31	92,31	14,72
Overall QoL	14	80,00	68,91	91,09	19,22	14	72,86	64,25	81,46	14,90
Total Score	14	78,59	72,94	84,24	9,78	14	77,69	71,18	84,20	11,27

MW = Mittelwert, 95%-KI des MW = 95%-Konfidenzintervall des Mittelwerts, UG = Untergrenze, OG = Obergrenze, SD = Standardabweichung
 CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore

Tabelle 14: Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall und Standardabweichung der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und drei bis vier Monate nach ROBERT

Die Berechnung mittels Shapiro-Wilk zeigte, dass für die Ergebnisse der CPCHILD®-Teilbereiche *ADL* und *PTM* in der Studiengruppe mit CPCHILD®-Befragung vor und drei bis vier Monate nach ROBERT Normalverteilung anzunehmen ist, für die übrigen Sections jedoch nicht. Aus diesem Grund erfolgte der Vergleich der CPCHILD®-Scores mittels parameterfreiem Wilcoxon-Vorzeichenrangtest bei verbundenen Stichproben. Dieser zeigte für keinen der Teilbereiche eine signifikante Differenz vor und drei bis vier Monate nach ROBERT (siehe Tabelle 15).

	p-Wert Wilcoxon-Vorzeichenrangtest
ADL	0,826
PTM	0,675
CE	0,230
CSI	0,894
Health	0,723
Overall QoL	0,096
Total Score	0,826
CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/ Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore	

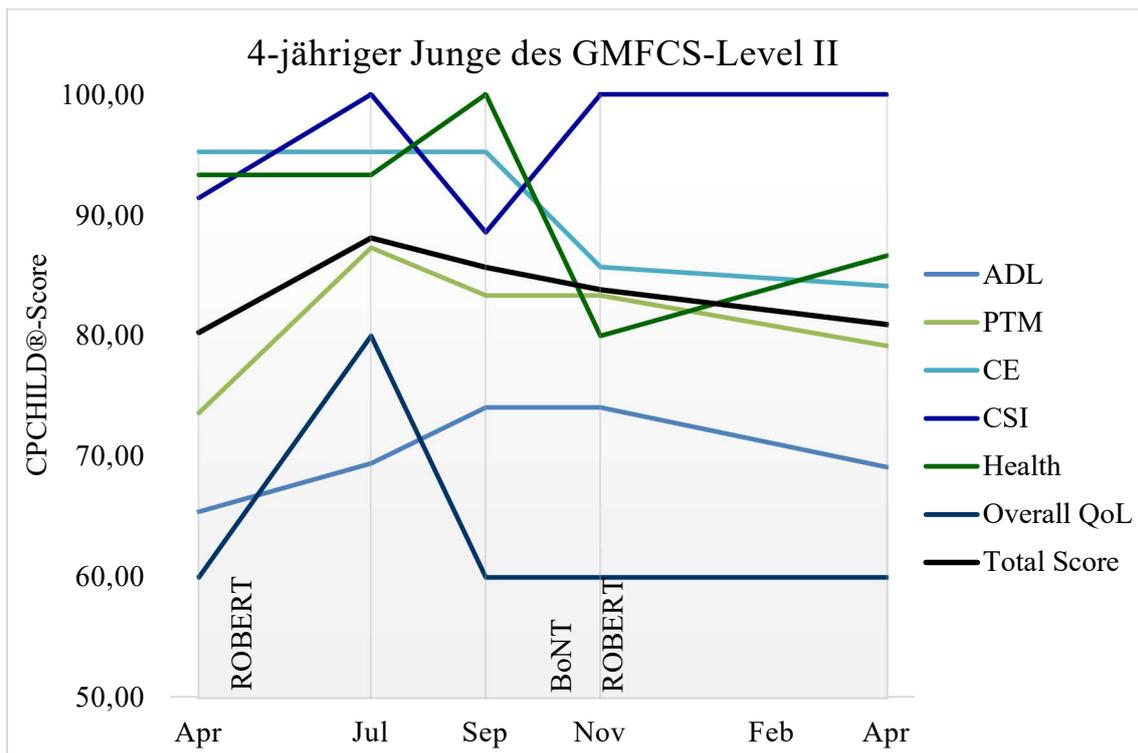
Tabelle 15: Wilcoxon-Vorzeichenrangtest der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und drei bis vier Monate nach ROBERT

4.5 Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese

Nachfolgend sind die CPCHILD®-Scores einzelner Patienten, von denen im Rahmen der klinischen Arbeit zu mehreren Zeitpunkten CPCHILD®-Fragebögen erhoben worden waren, im Langzeitverlauf dargestellt. Besondere Interventionen sind in den Abbildungen zum jeweiligen Zeitpunkt vermerkt:

- ROBERT (robot-enhanced repetitive treadmill therapy): Roboter-gestütztes repetitives Laufbandtraining mit dem Lokomat® bestehend aus zwölf Therapiesessions über drei Wochen
- BoNT: Injektion von Botulinumtoxin in besonders von der Spastizität betroffene Muskeln
- SDR: Selektive Dorsale Rhizotomie

Zusätzlich erhielten die Patienten die für Kinder mit Cerebralparese übliche Standardtherapie. Diese ist in den Grafiken nicht gesondert aufgeführt.

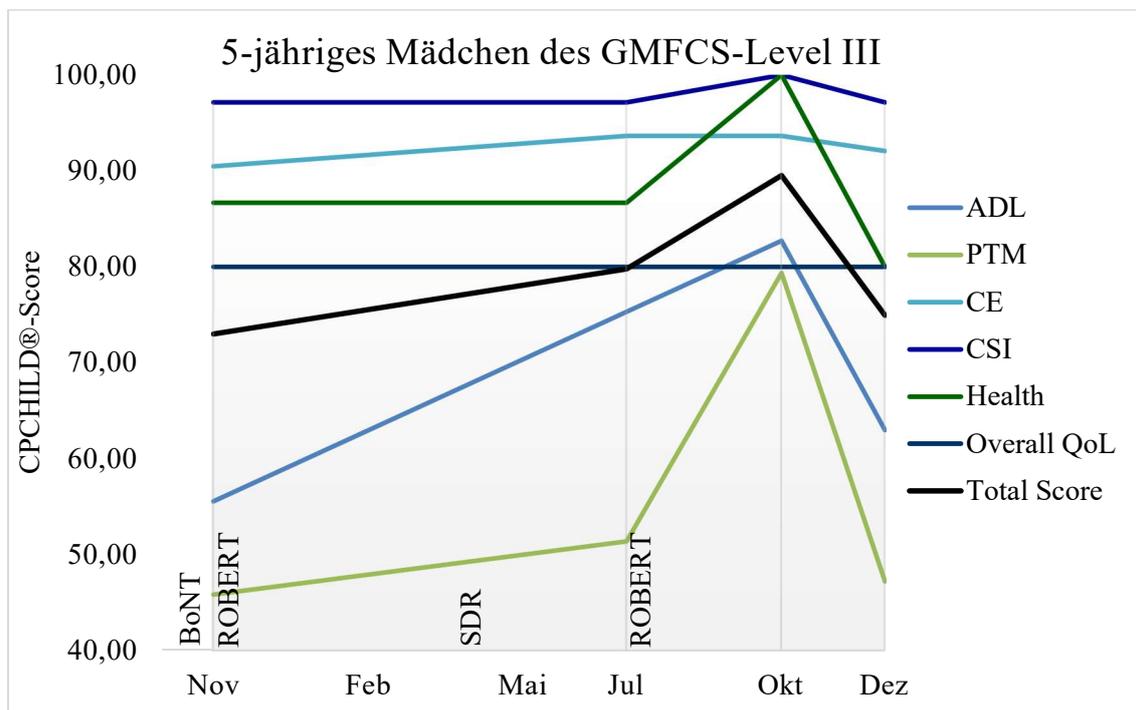


CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore; ROBERT = robot-enhanced repetitive treadmill therapy, BoNT = Therapie mit Botulinumneurotoxin

Abbildung 7: Langzeitverlauf der CPCHILD®-Scores eines 4-jährigen Jungen des GMFCS-Level II

Abbildung 7 zeigt die CPCHILD®-Scores eines Jungen, der zum Zeitpunkt der ersten Fragebogenerhebung 4 Jahre und 7 Monate alt war und GMFCS-Level II zugeordnet ist. Im dargestellten Zeitraum hat er einen Integrationskindergarten besucht. Er hat im Verlauf eines Jahres zwei Mal das ROBERT-Programm erhalten. Laut Aussage der Mutter habe er durch den ersten Trainingsblock deutlich an Ausdauer und Kraft dazugewonnen. Diese Aussage konnte durch die Ergebnisse von 6-Minuten-Gehtest und 10-Meter-Gehtest mit einer Zunahme von Ausdauer und Geschwindigkeit objektiviert werden. Im CPCHILD®-Verlauf zeigte sich sechs Wochen nach dem ersten ROBERT-Programm ein Anstieg der Sectionscores *ADL*, *PTM*, *CSI*, *Overall QoL* und des Gesamtscores. In der Section *ADL* kam es nach drei Monaten zu einer weiteren Zunahme, in den anderen Sections fiel der Score wieder ab. Insgesamt zeichneten sich drei Monate nach Ende des ROBERT-Programms im Vergleich zu vorher ein höherer CPCHILD®-Gesamtscore sowie höhere Sectionscores in den Teilbereichen *ADL*, *PTM* und *Health* ab. Vor dem zweiten Block ROBERT erhielt der Junge gezielte Injektionen mit Botulinumtoxin in besonders von der Spastizität betroffene Muskeln der unteren

Extremität. Nach dieser Trainingseinheit berichtete die Mutter, dass insgesamt keine große Veränderung im Alltag erzielt worden sei. In den oben genannten motorischen Tests zeigten sich jedoch auch nach dem zweiten Block ROBERT Verbesserungen von Ausdauer und Geschwindigkeit. Der CPCHILD®-Langzeitverlauf ergab fünf Monate nach diesem ROBERT-Programm relativ konstante Scores, mit einer Zunahme in der Section *Health* und leichter Abnahme der Werte von *ADL*, *PTM*, *CE* und *Total Score*.

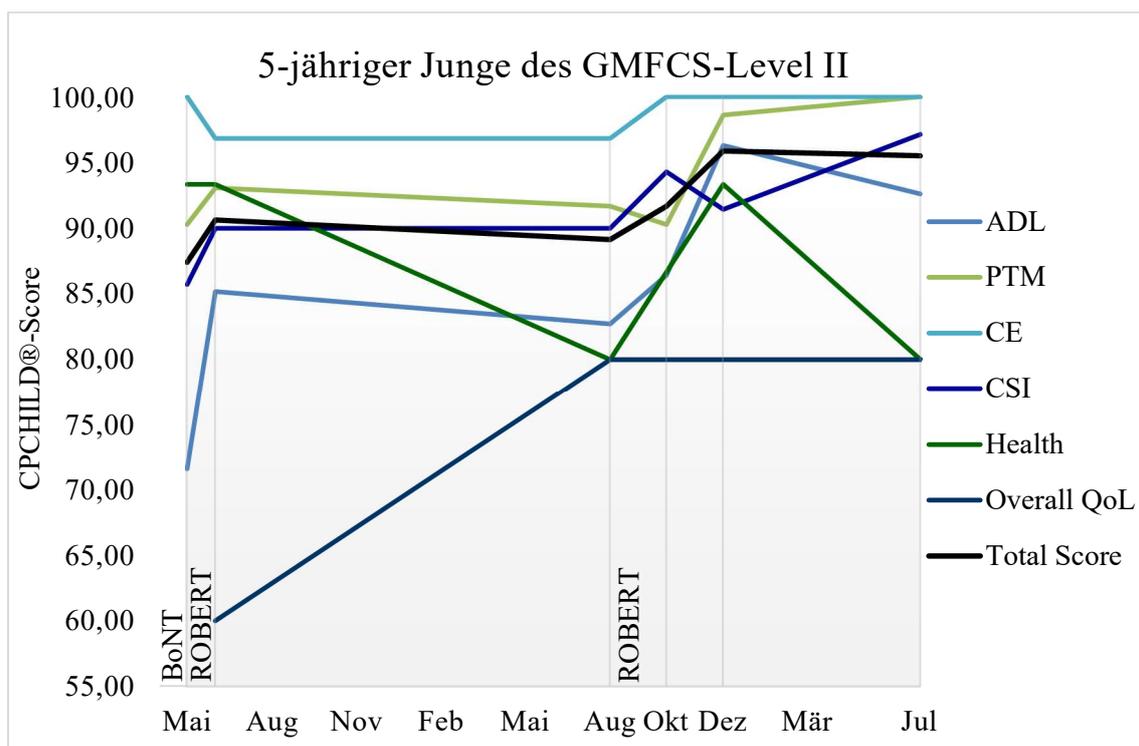


CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore; ROBERT = robot-enhanced repetitive treadmill therapy, BoNT = Therapie mit Botulinumneurotoxin, SDR = selektive dorsale Rhizotomie

Abbildung 8: Langzeitverlauf der CPCHILD®-Scores eines 5-jährigen Mädchens des GMFCS-Level III

Abbildung 8 zeigt den CPCHILD®-Verlauf eines Mädchens des GMFCS-Level III, das zum Zeitpunkt der ersten Fragebogenerhebung fünf Jahre und acht Monate alt war und die schulvorbereitende Einrichtung des ICP besuchte. Im dargestellten Zeitraum erhielt sie zwei Mal das ROBERT-Programm, beim ersten Block mit vorheriger Botulinumtoxintherapie der unteren Extremität. Durch den ersten Block ROBERT hat sie sich, wie es die Ergebnisse von 6-Minuten-Gehtest und 10-Meter-Gehtest zeigen, in Ausdauer und Geschwindigkeit stark verbessert. Einige Monate später wurde eine selektive dorsale Rhizotomie mit anschließendem dreiwöchigem

Rehabilitationsprogramm durchgeführt. Von dieser Therapie profitierte sie bezüglich einer Tonusreduktion sehr. Nach dem darauf folgenden ROBERT-Programm zeigte sich wiederum eine deutliche Steigerung von Ausdauer und Geschwindigkeit im 6-Minuten-Gehtest und 10-Meter-Gehtest. Zwei Monate nach Ende des zweiten ROBERT-Blocks ist im Langzeitverlauf eine Zunahme des CPCHILD®-Gesamtscores sowie der Sectionscores *ADL*, *PTM*, *CSI* und *Health* zu erkennen. Besonders ausgeprägt ist diese Zunahme in der Kategorie *PTM*. Vier Monate nach ROBERT zeigte sich dann ein Abfall der CPCHILD®-Scores, in den meisten Sections auf Werte unterhalb der Scores vor ROBERT. Für diesen Zeitraum ist uns kein klinisches oder persönliches Ereignis bekannt, welches in Zusammenhang mit dem mittels CPCHILD® gemessenen Abfall der HrQoL stehen könnte.



CPCHILD®-Section: ADL = Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens, PTM = Positionierung, Transfer & Mobilität, CE = Wohlbefinden & Gefühle, CSI = Kommunikation & soziale Interaktion, Health = Gesundheit, Overall QoL = Lebensqualität insgesamt, Total Score = Gesamtscore; ROBERT = robot-enhanced repetitive treadmill therapy, BoNT = Therapie mit Botulinumneurotoxin

Abbildung 9: Langzeitverlauf der CPCHILD®-Scores eines 5-jährigen Jungen des GMFCS-Level II

In Abbildung 9 ist der CPCHILD®-Langzeitverlauf eines zum Zeitpunkt der ersten Datenerhebung fünf Jahre und einen Monat alten Jungen des GMFCS-Level II zu sehen. Er erhielt zwei Mal das ROBERT-Programm, beim ersten Mal erfolgte vorher die

Injektion von Botulinumtoxin in besonders von der Spastizität betroffene Muskeln. Die Eltern berichten, dass sich nach der Behandlung mit Botulinumtoxin eine vorübergehende Schwäche der Beine mit reduzierter selbstständiger Mobilität eingestellt habe. Nach dem ROBERT-Training im Mai seien dann jedoch ein deutlich stabilerer Gang sowie eine größere Ausdauer beim Radfahren aufgefallen. Eine im Vergleich verbesserte Ausdauer sowie Geschwindigkeit konnten ebenso im 6-Minuten-Gehtest und 10-Meter-Gehtest gemessen werden. Der CPCHILD®-Langzeitverlauf zeigte direkt nach ROBERT eine Zunahme der Scores der Sections *ADL*, *PTM*, *CSI* und des Gesamtscores. Ab September besuchte der Junge als Integrationskind einen Kindergarten. Bei der nächsten CPCHILD®-Befragung im August vor dem zweiten ROBERT-Programm fielen eine deutliche Steigerung im Bereich *Overall QoL* und eine Abnahme in der Section *Health* bei ansonsten relativ konstanten Scores auf. Nach dem zweiten Block ROBERT berichtet der Vater von nachhaltigen Wirkungen, sein Sohn habe mehr Kraft, das Starten und Stoppen habe sich verbessert und die Ausdauer habe zugenommen. Die Verbesserung der Ausdauer konnte im 6-Minuten-Gehtest durch eine deutliche Zunahme der Gehstrecke objektiviert werden. Im Folgemonat habe der Wechsel in die schulvorbereitende Einrichtung des ICP stattgefunden. Laut Angaben des Vaters sei seinem Sohn die Eingewöhnung dort nicht leichtgefallen und es sei anstrengend für ihn gewesen, nach drei Monaten sei er dort aber gut integriert gewesen. Die nächsten CPCHILD®-Befragungen erfolgten sechs Wochen und drei Monate nach ROBERT, hierbei ist insgesamt eine zunehmende Tendenz der Scores zu erkennen, lediglich die *Overall QoL* blieb konstant und in der Section *PTM* kam es nach einem leichten Abfall nach sechs Wochen erst nach drei Monaten zu einem Anstieg des Scores. Der Vater berichtet beim nächsten Termin, dass die Nachtlagerungsschienen seit einiger Zeit zu klein seien und sein Sohn multiple Druckstellen bekomme, wenn er sie trage. Im auf das zweite ROBERT-Programm folgenden Zeitraum des CPCHILD®-Verlaufs ohne besondere Intervention zeigte sich im Abstand eines halben Jahres ein relativ konstanter Verlauf der CPCHILD®-Scores mit Ausnahme der Section *Health*, welche einen deutlichen Abfall zeigte.

5 Diskussion

Die Diskussion beschäftigt sich zunächst mit den im Abschnitt ‚Fragestellung‘ aufgeworfenen und im Kapitel ‚Ergebnisse‘ beantworteten Fragen dieser Arbeit zum Einfluss des ROBERT-Programms auf die mit dem CPCHILD® gemessene gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese und betrachtet diese im Kontext aktueller Literatur. Nachfolgend werden Limitationen und Stärken der durchgeführten Studie herausgearbeitet.

5.1 Diskussion der Ergebnisse im Kontext aktueller Literatur

5.1.1 Das Patientenkollektiv

Insgesamt konnten die CPCHILD®-Fragebögen von 31 verschiedenen Kindern in die Studie mit einbezogen werden. Die Geschlechterverteilung war hierbei, gemessen an der Gruppengröße, weitgehend ausgeglichen mit 54,8% weiblichen und 45,2% männlichen Teilnehmern. Ursprünglich wurde der CPCHILD® von Narayanan et al. zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit schwerer Cerebralparese (GMFCS-Level IV und V) entwickelt (60). In der Studie von Jung et al. zur Überprüfung der Test-Retest-Reliabilität und der Korrelation mit dem GMFCS-Level der deutschen Version des CPCHILD® wurden auch Kinder des GMFCS-Level III eingeschlossen (77). Bei Festlegung der Einschlusskriterien dieser Studie entschieden wir uns bewusst für den Einschluss von Kindern mit geringerer körperlicher Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV). Ein Grund hierfür war, dass wir so ein weiteres GMFCS-Level – Level II – in die Korrelationsanalyse zwischen GMFCS-Level und CPCHILD®-Score einbeziehen konnten. Darüber hinaus sollte der Einfluss des ROBERT-Programms auf die HrQoL untersucht werden. Das für diese Therapie typische Patientenkollektiv entspricht jedoch motorisch besser entwickelten Kindern, die nach GMFCS-Einteilung eher Level II-IV und nicht IV-V entstammen. Zum Zeitpunkt des Beginns der Studie gab es keinen validierten HrQoL-Fragebogen in deutscher Sprache für Kinder mit Cerebralparese der GMFCS-Level II-IV zur Abbildung des Einflusses einer motorischen Intervention. Somit stellte sich die Frage, ob der CPCHILD® ebenso als Messinstrument des Einflusses therapeutischer Interventionen auf die Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese mit geringerer körperlicher Beeinträchtigung geeignet ist. Das Patientenkollektiv konnte nicht gleichmäßig aus Kindern der verschiedenen Schweregrade der körperlichen

Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) zusammengesetzt werden. Das Überwiegen der Kinder mit geringerer körperlicher Beeinträchtigung (niedrigeres GMFCS-Level) ist bei der nachfolgenden Interpretation zu berücksichtigen, insbesondere der anteilige Unterschied zwischen den Gruppen mit CPCHILD®-Beantwortung nach ROBERT-Programm und der Gruppe mit CPCHILD®-Beantwortung im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie (siehe Tabelle 5).

5.1.2 Wie beeinflusst der Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese – gemessen mit dem CPCHILD®-Fragebogen?

Wie bereits in vorangegangenen Studien beschrieben, konnte auch in dieser Studie anhand des CPCHILD® eine Abnahme der gesundheitsbezogenen Lebensqualität mit zunehmendem Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung (höheres GMFCS-Level) beobachtet werden (60, 77). Während die ursprüngliche Validierung des CPCHILD® für Kinder mit schwerer körperlicher Beeinträchtigung (entsprechend GMFCS-Level IV und V) erfolgt war (60), wurden zur Validierung der deutschen Version des CPCHILD® auch Kinder des GMFCS-Level III eingeschlossen (77). In dieser Studie wurden nun auch Kinder der GMFCS-Level II und III in die Auswertung miteinbezogen. Die Mittelwertdifferenz der CPCHILD®-Scores zwischen benachbarten GMFCS-Leveln zeigte vergleichbare Werte zwischen Level III und IV und Level II und III. Diese Trennschärfe deutet daraufhin, dass der CPCHILD® es ebenso vermag, gut zwischen den GMFCS-Leveln II-IV zu unterscheiden und dementsprechend auch in dieser Patientengruppe als Instrument zur Abbildung der HrQoL geeignet sein könnte. Zudem ähneln die Mittelwerte des Gesamtscores unterteilt nach GMFCS-Level den Werten, die Narayanan, Weir et Fehlings im CPCHILD®-Handbuch als zu erwartende Scores für Kinder mit Cerebralparese der verschiedenen GMFCS-Level angeben (27). Insbesondere in den, die motorische Funktion betreffenden, Teilbereichen *ADL* und *PTM* sowie im Gesamtscore ist die Abnahme des Mittelwerts mit zunehmendem GMFCS-Level – wie in Abbildung 2 und Tabelle 6 abgebildet - deutlich zu sehen. Diese Beobachtung lässt sich mit Betrachtung der 95%-Konfidenzintervalle der Mittelwerte der CPCHILD®-Scores mit fehlender Überlappung dieser in der Section *PTM* zwischen den drei GMFCS-Leveln als trennscharf bezeichnen. Für die Section *ADL* und den Gesamtscore zeigte sich diese Trennschärfe zumindest zwischen GMFCS-

Level II und IV sowie II und III (*ADL*) bzw. III und IV (Gesamtscore) (siehe Tabelle 5). Ebendiese Bereiche des Fragebogens waren es auch, für die sich laut Kruskal-Wallis-Test (siehe Tabelle 6) auf dem 0,01 Niveau signifikante Unterschiede der CPCHILD®-Scores getrennt nach Gruppen unterschiedlicher körperlicher Beeinträchtigung ergaben. In den Sections *CE* und *CSI* waren die Unterschiede zumindest auf dem 0,05 Niveau signifikant, in der Kategorie *Health* und *Overall QoL* fand sich kein signifikantes Ergebnis. Auch in der Korrelationsanalyse zeigte sich im Gesamtscore sowie den Teilbereichen *ADL* und *PTM* eine deutliche negative Korrelation zum GMFCS-Level ($\tau = -0,605 - -0,630$). In den anderen Teilbereichen des Fragebogens ließ sich eine geringere negative Korrelation ($\tau = -0,340 - -0,372$) feststellen, was darauf hindeutet, dass die Aspekte *Wohlbefinden und Gefühle, Kommunikation und soziale Interaktion, Gesundheit* sowie *Lebensqualität insgesamt* weniger stark durch das GMFCS-Level beeinflusst werden. Dieser Trend wurde bereits von Jung et al. in der Studie zur Validierung der deutschen Übersetzung des CPCHILD® 2014 beschrieben (77).

5.1.3 Ändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter „Standardtherapie“ über einen Zeitraum von drei Monaten?

Mittels CPCHILD®-Befragung im Abstand von drei Monaten wurde der Verlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese unter Standardtherapie untersucht. Hierbei zeigte sich keine signifikante Differenz der Mittelwerte zwischen den beiden Zeitpunkten der CPCHILD®-Befragung. Das bisher zur Überprüfung der Test-Retest-Reliabilität des CPCHILD® in Studien von Narayanan et al. und Jung et al. angewandte Intervall betrug jeweils zwei Wochen (60, 77). Daten zu Zweitbefragungen nach einem, unserem drei-Monats-Intervall ähnlich langen Zeitraum ohne dazwischenliegende Intervention sind bisher nicht bekannt. Im Zeitraum von drei Monaten unter Standardtherapie ergab sich mittels CPCHILD® keine messbare Veränderung der Lebensqualität untersuchter Kinder.

5.1.4 Führt eine Teilnahme am ROBERT-Programm zu einer Verbesserung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese?

Zur Untersuchung eines möglichen Einflusses des ROBERT-Programms auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese wurde in einer Erstbefragung der CPCHILD®-Fragebogen am Tag vor Beginn der Therapie durch die

Eltern beantwortet. Die Zweitbefragungen fanden sechs bis neun Wochen bzw. drei bis vier Monate nach der Intervention statt. Aufgrund des blockweise stattfindenden ROBERT-Programms wurden die Zeitpunkte der Zweitbefragung mit zeitlichem Abstand gewählt, um einen eventuellen Einfluss der Therapie auf die Lebensqualität der Kinder nach Wiedereintreten der Alltagssituation feststellen und zeitlich einordnen zu können.

5.1.4.1 Sechs bis neun Wochen nach Therapie

Bei dem Vergleich der CPCHILD®-Scores vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT-Programm zeigte sich eine leichte Zunahme der Mittelwerte im *Total Score* sowie den Kategorien *ADL*, *PTM*, *CE*, *CSI* und *Health* nach Therapie. Die 95%-Konfidenzintervalle der Ergebnisse beider Zeitpunkte wiesen jedoch in allen Teilbereichen und im Gesamtscore eine deutliche Überlappung auf, wobei bei der Interpretation der 95%-Konfidenzintervalle die kleine Gruppengröße von $n = 15$ berücksichtigt werden muss. Der Wilcoxon-Vorzeichenrangtest ergab einen auf dem 0,05 Niveau signifikanten Unterschied für den *Total-Score* sowie die Section *ADL* sechs bis neun Wochen nach ROBERT-Programm im Vergleich zu vor der Therapie. Hierbei waren die Scores nach der Therapie signifikant größer als vorher. In bisherigen Studien lag die Test-Retest-Range des *Total Scores* bei zweimaliger Befragung im Abstand von zwei Wochen im Mittel bei 4,1 Punkten laut Narayanan et al. bzw. bei 6,48 Punkten laut Jung et al. für die deutsche Version des Fragebogens (60, 77). Die Differenz der Mittelwerte unserer Studiengruppe vor und nach Therapie lag mit +2,11 Punkten für den *Total Score* und +4,92 Punkten für die Section *ADL* innerhalb der bisher beschriebenen Test-Retest-Range. Deshalb interpretierten wir die klinische Bedeutung dieses gemessenen positiven Effekts auf die HrQoL sechs bis neun Wochen nach ROBERT-Programm als nicht therapiespezifisch. Die Mittelwertdifferenz unserer Studiengruppe mit Beantwortung des CPCHILD® zwei Mal im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie lag für die Section *ADL* bei +0,06 und für den *Total Score* bei -0,64. Im Vergleich hierzu lässt sich in der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens sechs bis neun Wochen nach ROBERT mit den erbrachten Ergebnissen jedoch zumindest ein deutlich positiverer Trend aufzeigen.

5.1.4.2 Drei bis vier Monate nach Therapie

Um den Transfer der Wirkung des ROBERT-Programms in den Alltag der Patienten besser erfassen zu können und die Nachhaltigkeit eines eventuellen Einflusses auf die HrQoL feststellen zu können, wurde der CPCHILD®-Fragebogen drei bis vier Monate nach Ende des ROBERT-Programms beantwortet. In dieser Studiengruppe war beim Vergleich der Mittelwerte der CPCHILD®-Scores mit denen vor der Therapie kein positiver Effekt zu verzeichnen. Die 95%-Konfidenzintervalle der Ergebnisse beider Zeitpunkte zeigten eine deutliche Überlappung im Gesamtscore sowie allen Teilbereichen des CPCHILD®-Fragebogens. Laut Wilcoxon-Vorzeichenrangtest ergab sich keine signifikante Differenz der Ergebnisse beider Zeitpunkte. Eine Verbesserung der motorischen Gangfunktion durch Teilnahme am ROBERT-Programm wurde bereits in mehreren Studien nachgewiesen (46, 48, 49, 51). Es zeigte sich eine signifikante Verbesserung der ICF-Domäne „Aktivität“ - repräsentiert durch die Dimensionen D und E des GMFM 66 - und der ICF-Domäne „Partizipation“ mit dem „Canadian Occupational Performance Measure“ (COPM) als Outcome Parameter (46). Die Nachhaltigkeit dieser gemessenen funktionellen Verbesserungen nach dem dreiwöchigen Roboter-gestützten Laufbandtraining wiesen Borggräfe et al. in ihrer Studie sechs Monate nach Therapie nach (51). Ein Einfluss auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität konnte drei bis vier Monate nach ROBERT-Programm in unserer Studie mittels CPCHILD® jedoch nicht festgestellt werden. Ob nun generell davon ausgegangen werden kann, dass das ROBERT-Programm keinen relevanten langfristigen Einfluss auf die HrQoL von Kindern mit Cerebralparese hat, oder lediglich der CPCHILD® als Messinstrument für diese Fragestellung nicht gut geeignet ist, bleibt zu klären. Zur Abbildung des Einflusses invasiver Eingriffe auf die Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese mit schwerer körperlicher Beeinträchtigung hat der CPCHILD® bereits einen guten Stellenwert erlangt. So zeigten u.a. DiFazio et al. und Bohtz et al. in ihren Studien im CPCHILD® messbare Verbesserungen der gesundheitsbezogenen Lebensqualität nach Durchführung von Wirbelsäulenoperationen (79, 80). DiFazio zeigte in einer Studie mittels CPCHILD® zudem den positiven Einfluss der Wiederherstellungschirurgie bei spastisch bedingter Hüft dysplasie auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit schwerer Cerebralparese (81). Zuletzt wiesen MiyANJI et al. eine über 5 Jahre im CPCHILD® anhaltend zu messende Verbesserung der HrQoL nach Spondylodese nach (82). Jung et al. konnten anhand des CPCHILD® außerdem den negativen Einfluss der Hüftlateralisation auf die

gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese abbilden (83). Aufgrund unserer Ergebnisse gehen wir davon aus, dass der CPCHILD® nicht das richtige Instrument ist, um einen Einfluss des ROBERT-Programms auf die Lebensqualität zu messen. Er scheint nicht sensitiv genug zu sein um bei Kindern mit Cerebralparese mit vergleichsweise guter motorischer Funktion die Effekte weiterer Verbesserungen der grobmotorischen Fertigkeiten auf die HrQoL zu detektieren. Ein inzwischen etablierter und zur Beantwortung dieser Fragestellung besser geeigneter Lebensqualitätsfragebogen scheint der GOAL® („Gait Outcomes Assessment List“) zu sein (84). Dieser wurde für gehfähige Kinder mit Cerebralparese konzipiert und umfasst dementsprechend im Vergleich zum CPCHILD® Kinder mit besseren motorischen Fertigkeiten (GMFCS-Level I-III) als Zielgruppe (84). König konnte 2017 in einem unserer Studie vergleichbaren Studiendesign eine therapeutische Responsivität des GOAL® nach ROBERT zeigen (85).

5.1.5 Der Langzeitverlauf der gesundheitsbezogenen Lebensqualität am Beispiel einzelner Patienten mit Cerebralparese

Um ein Bild möglicher Ursachen für Veränderungen des CPCHILD®-Scores zu gewinnen, wurde von drei Patienten exemplarisch ein CPCHILD®-Langzeitverlauf dargestellt.

Im CPCHILD®-Verlauf des vierjährigen Jungen des GMFCS-Level II (siehe Abbildung 7) ist nach dem ersten ROBERT-Programm eine deutlich ansteigende Tendenz der CPCHILD®-Scores zu sehen. Im darauf folgenden Intervall ohne besondere Interventionen zeigten sich v.a. in den Sections *CE*, *CSI*, *Health* und *Overall QoL* Schwankungen der Scores. Nach dem zweiten Block ROBERT ist erst einige Monate später das nächste Mal der CPCHILD® beantwortet worden, in diesem längeren Zeitraum ist der Gesamtscore leicht abgefallen.

Der CPCHILD®-Langzeitverlauf des fünfjährigen Mädchens des GMFCS-Level III (Abbildung 8) schließt den Zeitpunkt der Durchführung einer selektiven dorsalen Rhizotomie, einer lebensverändernden Operation mit ein. Die CPCHILD®-Fragebögen wurden nicht direkt vor und nach diesem Eingriff beantwortet, weshalb es schwierig ist, Rückschlüsse auf den Einfluss dieser Intervention zu ziehen. Überraschend fällt jedoch die vergleichsweise geringe Veränderung der CPCHILD®-Scores im betreffenden Zeitraum auf. Zwei Monate nach ROBERT-Programm sieht man bei derselben Patientin einen deutlichen Anstieg aller Sectionscores bis auf *CE* und *Overall QoL*, und vier

Monate danach einen ähnlich starken Abfall ohne Kenntnis eines besonderen Ereignisses in diesem Zeitraum.

Abbildung 9 bildet den CPCHILD®-Langzeitverlauf eines fünfjährigen Jungen des GMFCS-Level II ab. Hierbei ist jeweils nach ROBERT-Programm bis zu drei Monate lang ein Anstieg des Gesamtscores zu erkennen, der sich in den darauffolgenden Monaten ohne besondere motorische Intervention konstant hält. Laut CPCHILD®-Verlauf scheinen abgesehen von dem ROBERT-Programm in dem aufgezeigten Zeitraum keine weiteren Einflüsse auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität gewirkt zu haben, auch wenn der Junge im betroffenen Zeitraum einen Wechsel vom Kindergarten in die schulvorbereitende Einrichtung des ICP mit schwieriger Eingewöhnung sowie Druckstellen-verursachende Nachtlagerungsschienen erlebt hat. In diesem Einzelfall lässt sich der therapiespezifische Einfluss des ROBERT-Programms auf den CPCHILD®-Verlauf folglich sehr gut abbilden.

Generell ist bei der Interpretation der grafisch teilweise sehr eindrücklich anmutenden Veränderungen der Scores der Sections *Health* und *Overall QoL* zu berücksichtigen, dass diese Sections nur durch drei bzw. eine Frage im Fragebogen abgebildet werden. Dadurch macht sich bereits jede Änderung der Beantwortung einer Frage dieser Kategorie grafisch deutlich bemerkbar. Ein Sprung des CPCHILD®-Scores der Section *Overall QoL* von 60 auf 80, wie zum Beispiel bei dem fünfjährigen Jungen des GMFCS-Level II (siehe Abbildung 9) der Fall, bedeutet, dass die Eltern die Lebensqualität ihres Kindes insgesamt um eine Stufe besser einschätzen als zuvor. Da es in dieser Section als Antwortmöglichkeiten nur die sechs Stufen von ‚0 = sehr schlecht‘ bis ‚5 = ausgezeichnet‘ gibt, resultieren demzufolge im Sectionscore der *Overall QoL* 20er-Schritte von 0 bis 100.

Ähnlich der Gruppenanalyse ergab sich auch bei Betrachtung der Langzeitverläufe der Eindruck, dass der CPCHILD® nicht sensitiv genug ist, um therapiespezifische Einflüsse des ROBERT-Programms auf die Lebensqualität der Kinder abzubilden. Es zeigten sich teilweise therapieunabhängig erhebliche Schwankungen der CPCHILD®-Scores, denen keine Ursache zugeordnet werden konnte, so dass davon ausgegangen wird, dass therapiebezogene Effekte nicht gut detektiert werden können. Unni G. Narayanan präsentierte 2011 Daten, die zeigten, dass der CPCHILD® sensitiv genug ist, um Veränderungen nach Skoliose-Operation bei Kindern mit schwerer Cerebralparese wahrzunehmen und sechs bzw. zwölf Monate nach Skoliose-Operation signifikante Verbesserungen des Gesamtscores und einzelner Sectionscores zu messen

(86). Im Langzeit-Follow-Up wies Miyajima diesen Effekt fünf Jahre nach Operation anhaltend nach (82). Einen konstant positiven Einfluss auf die HrQoL der Kinder in den Monaten nach ROBERT-Programm konnte bei den dargestellten Langzeitverläufen nur bei einem Patienten nachgewiesen werden (siehe Abbildung 9). Wie in 4.4.2 und 5.1.4.2 dargestellt und diskutiert konnte drei bis vier Monate nach ROBERT-Programm insgesamt keine signifikante Steigerung des CPCHILD®-Scores festgestellt werden.

5.2 Stärken und Schwächen der durchgeführten Studie

Wir führten eine prospektive nicht-randomisierte kontrollierte Kohortenstudie mit Patienten des iSPZ des Dr. von Haunerschen Kinderspitals zur Erfassung des Einflusses des ROBERT-Programms auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese durch. Als Messinstrument der HrQoL diente die deutsche Version des CPCHILD®, eines krankheitsspezifischen strukturierten Fragebogens für Kinder mit Cerebralparese. Dieser hat in vorangegangenen Studien gute Testgütekriterien erreicht und war zum Zeitpunkt des Beginns dieser Studie der einzige in deutscher Sprache validierte krankheitsspezifische Lebensqualitätsfragebogen für Kinder mit Cerebralparese (60, 77). Für diese Studie konnte ein relativ homogenes Patientenkollektiv von Kindern mit bilateraler Cerebralparese gewonnen werden, das Kinder unterschiedlicher Schweregrade der körperlichen Beeinträchtigung (GMFCS-Level II-IV) umfasste. Ziel war es, den Einfluss des ROBERT-Programms, einer klaren aufgabenspezifischen Intervention, für die ein alltagsrelevanter Effekt auf die ICF-Domänen Aktivität und Partizipation bereits in mehreren Studien gezeigt werden konnte, auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität zu untersuchen (46, 48, 49).

Die wichtigste Limitation dieser Studie stellt das kleine Patientenkollektiv dar. Eine erneute Studie mit größeren Fallzahlen und dementsprechend größerer Power würde eventuell auch durch eine mögliche Unterteilung in Untergruppen nach Alter oder Geschlecht zu interessanten Zusatzinformationen führen.

In dieser Studie erfolgte die Bestimmung der Lebensqualität der Kinder aus Sicht ihrer Eltern, da der CPCHILD® als reiner Proxy-Fragebogen konzipiert ist, so dass bei der Interpretation der Ergebnisse ein systematischer Bias nicht ausgeschlossen werden kann. Heute ist aus der Lebensqualitätsforschung bekannt, dass teilweise erhebliche Unterschiede im Verständnis von Krankheit und der Interpretation von Fragen zu diesem Thema zwischen Kindern und ihren Eltern bestehen, so dass, wann immer

möglich, die Patientenperspektive der Lebensqualität mittels Self-Fragebögen ermittelt werden sollte (55, 70, 72).

Da bisher nicht ausreichend vergleichbare Daten zur Effektgröße von therapieassoziierten Veränderungen nicht-invasiver Therapien des CPCHILD® über einen definierten Zeitraum vorliegen, fehlen für die Interpretation gemessener Effekte sechs bis neun Wochen nach ROBERT Vergleichsdaten.

Zu berücksichtigen ist auch die bisher fehlende Validierung des CPCHILD®-Fragebogens zur Verwendung bei Kindern mit Cerebralparese des GMFCS-Level II.

6 Zusammenfassung

Den häufigsten Grund für Störungen der motorischen Entwicklung im Kindesalter stellen die Cerebralparesen mit einer Prävalenz von 2-3/1.000 Lebendgeborene dar (2, 3). Die klinische Symptomatik sowie der Schweregrad dieser Erkrankung weisen eine große Bandbreite an Variationen auf (1, 13). Zur Einteilung nach dem klinischen Schweregrad ist im klinischen Alltag das „Gross Motor Function Classification System“ (GMFCS) gebräuchlich, welches die Kinder von Level I bis V nach zunehmender körperlicher Beeinträchtigung einordnet (31). Um der adäquaten Therapie gerecht zu werden ist die interdisziplinäre Ausarbeitung eines individuellen, exakt auf die Bedürfnisse des jeweiligen Kindes zurechtgeschnittenen, Therapieplans von großer Bedeutung. Bei gehfähigen Kindern mit Cerebralparese steht hierbei oft eine Optimierung der Gehfähigkeit im Fokus der Therapieziele (24). Eine in den letzten Jahren immer häufiger auch bei Kindern mit Cerebralparese angewandte Therapieoption stellt die Roboter-gestützte Laufbandtherapie dar (46). Die 1999 eingeführte Roboter-assistierte Gangorthese namens Lokomat® ermöglicht ein vollautomatisiertes Laufbandtraining; mit Einführung des pädiatrischen Moduls im Jahr 2006 ist dieses für Kinder ab 4 Jahren geeignet (43, 47). Das aus zwölf Therapiesessions über drei Wochen bestehende Roboter-gestützte repetitive Laufbandtraining (ROBERT) mit dem Lokomat® wie es am Dr. von Haunerschen Kinderspital etabliert wurde, hat bereits in mehreren Studien eine Verbesserung der grobmotorischen Fähigkeiten von Kindern mit Cerebralparese gezeigt (46, 48-50). Zuletzt konnten diese motorischen Verbesserungen in den ICF-Domänen „Aktivität“ und „Partizipation“ nachgewiesen werden. Schröder et al. zeigten diese klinisch bedeutsamen Verbesserungen der „Aktivität“ anhand des GMFM-66-Total-Score, Dimension D und E, sowie der „Partizipation“ mit Hilfe des „Canadian Occupational Performance Measures“ (COPM). (46) Als Erfolgsmaß sowohl in der klinischen Forschung als auch in der klinischen Praxis nimmt in den letzten Jahren vermehrt auch die Messung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität an Bedeutung zu (58). Aus diesem Grund war das Ziel dieser Dissertation den Einfluss des ROBERT-Programms auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität der behandelten Kinder zu untersuchen. Als Maß diente hierfür die deutsche Version des „Caregiver Priorities of Child Health Index of Life with Disabilities“ (CPCHILD®), ein krankheitsspezifischer Proxyfragebogen zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit Cerebralparese. Er besteht aus 37 Fragen, die sechs

Teilbereichen zuzuordnen sind. Bei Auswertung des Fragebogens resultieren somit sechs Sectionscores und ein Gesamtscore, die die Lebensqualität abbilden. Die einzelnen Teilbereiche sind ‚Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens‘, ‚Positionierung, Transfer und Mobilität‘, ‚Wohlbefinden und Gefühle‘, ‚Kommunikation und soziale Interaktion‘, ‚Gesundheit‘ und ‚Lebensqualität insgesamt‘. Nach Einholen des Ethikvotums (Ethikkommission der medizinischen Fakultät der LMU München, Ethikvotum Nr. 364-14) zur Durchführung dieser Studie wurden die Patienten in der Motorik- und Interventionsambulanz des Dr. von Haunerschen Kinderspitals rekrutiert. Hierbei wurden Kinder mit bilateraler Cerebralparese eingeschlossen, die in den folgenden Monaten ein ROBERT-Programm durchlaufen oder die Standardtherapie erhalten sollten. Nach Einwilligung in die Teilnahme an dieser Studie beantworteten die Eltern betroffener Kinder zu definierten Zeitpunkten den CPCHILD®-Fragebogen. Die Auswertung der erhobenen Daten erfolgte mit Hilfe des Statistikprogramms IBM SPSS Statistics Version 23. Als ersten Teil dieser Arbeit konnten wir anhand des CPCHILD® vom Schweregrad der körperlichen Beeinträchtigung abhängige Unterschiede in der gesundheitsbezogenen Lebensqualität der untersuchten Kinder nachweisen. In die Validationsstudie der deutschen Version des Fragebogens von Jung et al. waren Kinder der GMFCS-Level III-V eingeschlossen worden und somit bereits das ursprünglich vorgesehene Patientenspektrum (GMFCS-Level IV-V) um Kinder besserer motorischer Fertigkeiten erweitert worden (60, 77). Wir führten dies mit unserer Studiengruppe und Einschluss von Kindern des GMFCS-Level II in Richtung gehfähiger Kinder weiter fort. Dabei zeigte der CPCHILD® ebenso eine Trennschärfe zwischen GMFCS-Level II und III wie auch zwischen Level III und IV (siehe Abbildung 3, Seite 42). Ein weiteres Ziel war die Prüfung des CPCHILD® auf seine Güte als Messinstrument zur Detektion therapiebedingter Veränderungen der Lebensqualität im Vergleich vor und nach Intervention. Zur Beurteilung eines Einflusses des ROBERT-Programms auf die HrQoL der Kinder mit Cerebralparese wurde der CPCHILD®-Fragebogen vor und sechs bis neun Wochen, sowie drei bis vier Monate nach Therapie von den Eltern beantwortet. Hierbei konnten wir keinen klinisch relevanten Unterschied der CPCHILD®-Scores vor und nach Therapie feststellen (siehe Abbildung 5, Seite 47 und Abbildung 6, Seite 50). In der Gruppe mit Beantwortung des Fragebogens sechs bis neun Wochen nach ROBERT zeigte sich ein statistisch signifikanter Unterschied des Sectionscores ‚Körperpflege/Aktivitäten des täglichen Lebens‘ und des Gesamtscores. Der gemessene

Effekt lag jedoch innerhalb der in vorherigen Studien bestimmten Test-Retest-Range (60, 77), so dass wir die klinische Bedeutung dieses Ergebnisses als nicht sicher therapie-spezifisch einordneten und allenfalls von einem Trend sprechen können. Zur Darstellung therapiebedingter ROBERT-spezifischer Änderungen auf Ebene der gesundheitsbezogenen Lebensqualität scheint der CPCHILD® als Elternfragebogen kein geeignetes Messinstrument zu sein. Inzwischen wurde ein neuer Lebensqualitätsfragebogen, der GOAL® („Gait Outcomes Assessment List“) etabliert, der für gehfähige Kinder mit Cerebralparese konzipiert wurde und dementsprechend Kinder mit besseren motorischen Fertigkeiten (GMFCS-Level I-III) umfasst (84). Somit wäre eine Folgearbeit mit diesem Fragebogen als Messinstrument für das ROBERT-typische Patientenkollektiv der niedrigeren GMFCS-Level eine interessante Möglichkeit.

7 Anhang

7.1 Literaturverzeichnis

Erklärung zur Zitierweise im Text: Bei Angabe der Quelle vor dem Satzzeichen bezieht sich diese ausschließlich auf den entsprechenden Satz. Eine Quellenangabe nach dem Satzzeichen bezieht sich auf den vorherigen Textabschnitt.

1. Bax M, Goldstein M, Rosenbaum P, Leviton A, Paneth N, Dan B, et al. Proposed definition and classification of cerebral palsy, April 2005. *Dev Med Child Neurol.* 2005;47(8):571-6.
2. Surveillance of Cerebral Palsy in E. Surveillance of cerebral palsy in Europe: a collaboration of cerebral palsy surveys and registers. *Surveillance of Cerebral Palsy in Europe (SCPE).* *Dev Med Child Neurol.* 2000;42(12):816-24.
3. Himmelmann K, Uvebrant P. The panorama of cerebral palsy in Sweden. XI. Changing patterns in the birth-year period 2003-2006. *Acta Paediatr.* 2014;103(6):618-24.
4. Platt MJ, Cans C, Johnson A, Surman G, Topp M, Torrioli MG, et al. Trends in cerebral palsy among infants of very low birthweight (<1500 g) or born prematurely (<32 weeks) in 16 European centres: a database study. *Lancet.* 2007;369(9555):43-50.
5. Himmelmann K, Hagberg G, Beckung E, Hagberg B, Uvebrant P. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. IX. Prevalence and origin in the birth-year period 1995-1998. *Acta Paediatr.* 2005;94(3):287-94.
6. Himmelmann K, Hagberg G, Uvebrant P. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. X. Prevalence and origin in the birth-year period 1999-2002. *Acta Paediatr.* 2010;99(9):1337-43.
7. Moreno-De-Luca A, Ledbetter DH, Martin CL. Genetic [corrected] insights into the causes and classification of [corrected] cerebral palsies. *Lancet Neurol.* 2012;11(3):283-92.
8. Krigger KW. Cerebral palsy: an overview. *Am Fam Physician.* 2006;73(1):91-100.
9. Nelson KB. Causative factors in cerebral palsy. *Clin Obstet Gynecol.* 2008;51(4):749-62.
10. Clark SM, Ghulmiyyah LM, Hankins GD. Antenatal antecedents and the impact of obstetric care in the etiology of cerebral palsy. *Clin Obstet Gynecol.* 2008;51(4):775-86.
11. Keogh JM, Badawi N. The origins of cerebral palsy. *Curr Opin Neurol.* 2006;19(2):129-34.
12. Gibson CS, MacLennan AH, Dekker GA, Goldwater PN, Sullivan TR, Munroe DJ, et al. Candidate genes and cerebral palsy: a population-based study. *Pediatrics.* 2008;122(5):1079-85.
13. Koman LA, Smith BP, Shilt JS. Cerebral palsy. *Lancet.* 2004;363(9421):1619-31.
14. Blumenthal I. Periventricular leucomalacia: a review. *Eur J Pediatr.* 2004;163(8):435-42.
15. Andersen GL, Irgens LM, Haagaas I, Skranes JS, Meberg AE, Vik T. Cerebral palsy in Norway: prevalence, subtypes and severity. *Eur J Paediatr Neurol.* 2008;12(1):4-13.

16. Hoon AH, Jr. Neuroimaging in cerebral palsy: Patterns of brain dysgenesis and injury. *J Child Neurol.* 2005;20(12):936-9.
17. Aisen ML, Kerkovich D, Mast J, Mulroy S, Wren TA, Kay RM, et al. Cerebral palsy: clinical care and neurological rehabilitation. *Lancet Neurol.* 2011;10(9):844-52.
18. Russman BS, Tilton A, Gormley ME, Jr. Cerebral palsy: a rational approach to a treatment protocol, and the role of botulinum toxin in treatment. *Muscle Nerve Suppl.* 1997;6:S181-93.
19. Bass N. Cerebral palsy and neurodegenerative disease. *Curr Opin Pediatr.* 1999;11(6):504-7.
20. Sanger TD, Delgado MR, Gaebler-Spira D, Hallett M, Mink JW, Task Force on Childhood Motor D. Classification and definition of disorders causing hypertonia in childhood. *Pediatrics.* 2003;111(1):e89-97.
21. Sheean G. The pathophysiology of spasticity. *Eur J Neurol.* 2002;9 Suppl 1:3-9; discussion 53-61.
22. Ivanhoe CB, Reistetter TA. Spasticity: the misunderstood part of the upper motor neuron syndrome. *Am J Phys Med Rehabil.* 2004;83(10 Suppl):S3-9.
23. Delgado MR, Albright AL. Movement disorders in children: definitions, classifications, and grading systems. *J Child Neurol.* 2003;18 Suppl 1:S1-8.
24. Narayanan UG. Management of children with ambulatory cerebral palsy: an evidence-based review. *J Pediatr Orthop.* 2012;32 Suppl 2:S172-81.
25. Sanger TD, Chen D, Fehlings DL, Hallett M, Lang AE, Mink JW, et al. Definition and classification of hyperkinetic movements in childhood. *Mov Disord.* 2010;25(11):1538-49.
26. Monbaliu E, Ortibus E, De Cat J, Dan B, Heyrman L, Prinzie P, et al. The Dyskinesia Impairment Scale: a new instrument to measure dystonia and choreoathetosis in dyskinetic cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2012;54(3):278-83.
27. Narayanan UG WS, Fehlings DL. The CPCHILD© Manual & Interpretation Guide. 2007.
28. Hallum A, Krumboltz JD. Parents caring for young adults with severe physical disabilities: psychological issues. *Dev Med Child Neurol.* 1993;35(1):24-32.
29. Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, Russell D, Wood E, Galuppi B. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 1997;39(4):214-23.
30. Palisano RJ, Rosenbaum P, Bartlett D, Livingston MH. Content validity of the expanded and revised Gross Motor Function Classification System. *Dev Med Child Neurol.* 2008;50(10):744-50.
31. Wood E, Rosenbaum P. The gross motor function classification system for cerebral palsy: a study of reliability and stability over time. *Dev Med Child Neurol.* 2000;42(5):292-6.
32. Rosenbaum PL, Palisano RJ, Bartlett DJ, Galuppi BE, Russell DJ. Development of the Gross Motor Function Classification System for cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2008;50(4):249-53.
33. Palisano RJ, Cameron D, Rosenbaum PL, Walter SD, Russell D. Stability of the gross motor function classification system. *Dev Med Child Neurol.* 2006;48(6):424-8.
34. Ostensjo S, Carlberg EB, Vollestad NK. Everyday functioning in young children with cerebral palsy: functional skills, caregiver assistance, and modifications of the environment. *Dev Med Child Neurol.* 2003;45(9):603-12.

35. Palisano RJ, Hanna SE, Rosenbaum PL, Russell DJ, Walter SD, Wood EP, et al. Validation of a model of gross motor function for children with cerebral palsy. *Phys Ther.* 2000;80(10):974-85.
36. Heinen F, Desloovere K, Schroeder AS, Berweck S, Borggraefe I, van Campenhout A, et al. The updated European Consensus 2009 on the use of Botulinum toxin for children with cerebral palsy. *Eur J Paediatr Neurol.* 2010;14(1):45-66.
37. Graham HK. Classifying cerebral palsy. *J Pediatr Orthop.* 2005;25(1):127-8.
38. Eliasson AC, Krumlinde-Sundholm L, Rosblad B, Beckung E, Arner M, Ohrvall AM, et al. The Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: scale development and evidence of validity and reliability. *Dev Med Child Neurol.* 2006;48(7):549-54.
39. Berweck S, Heinen F. Use of botulinum toxin in pediatric spasticity (cerebral palsy). *Mov Disord.* 2004;19 Suppl 8:S162-7.
40. Heinen F, Schröder AS, Döderlein L, Voss W, Hustedt U, Mall V, et al. Grafikgestützter Konsensus für die Behandlung von Bewegungsstörungen bei Kindern mit bilateral spastischer Cerebralparese (BS-CP). *Monatsschrift Kinderheilkunde.* 2009;157(8):789-94.
41. Gormley ME, Jr., Krach LE, Piccini L. Spasticity management in the child with spastic quadriplegia. *Eur J Neurol.* 2001;8 Suppl 5:127-35.
42. Schroeder AS, Huß K, Berweck S, Heinen F. Botulinumtoxin als Teil einer integrierten Behandlung. *Monatsschrift Kinderheilkunde.* 2009;157(11):1120.
43. Jezernik S, Colombo G, Keller T, Frueh H, Morari M. Robotic orthosis lokomat: a rehabilitation and research tool. *Neuromodulation.* 2003;6(2):108-15.
44. Hesse S. Locomotor therapy in neurorehabilitation. *NeuroRehabilitation.* 2001;16(3):133-9.
45. Tabea A, Warken B, Graser JV, Ulrich T, Borggraefe I, Heinen F, et al. Practical Recommendations for Robot-Assisted Treadmill Therapy (Lokomat) in Children with Cerebral Palsy: Indications, Goal Setting, and Clinical Implementation within the WHO-ICF Framework. *Neuropediatrics.* 2015;46(4):248-60.
46. Schroeder AS, Homburg M, Warken B, Auffermann H, Koerte I, Berweck S, et al. Prospective controlled cohort study to evaluate changes of function, activity and participation in patients with bilateral spastic cerebral palsy after Robot-enhanced repetitive treadmill therapy. *Eur J Paediatr Neurol.* 2014;18(4):502-10.
47. Borggraefe I, Meyer-Heim A, Kumar A, Schaefer JS, Berweck S, Heinen F. Improved gait parameters after robotic-assisted locomotor treadmill therapy in a 6-year-old child with cerebral palsy. *Mov Disord.* 2008;23(2):280-3.
48. Borggraefe I, Schaefer JS, Klaiber M, Dabrowski E, Ammann-Reiffer C, Knecht B, et al. Robotic-assisted treadmill therapy improves walking and standing performance in children and adolescents with cerebral palsy. *Eur J Paediatr Neurol.* 2010;14(6):496-502.
49. Meyer-Heim A, Ammann-Reiffer C, Schmartz A, Schaefer J, Sennhauser FH, Heinen F, et al. Improvement of walking abilities after robotic-assisted locomotion training in children with cerebral palsy. *Arch Dis Child.* 2009;94(8):615-20.
50. Schroeder AS, Von Kries R, Riedel C, Homburg M, Auffermann H, Blaschek A, et al. Patient-specific determinants of responsiveness to robot-enhanced treadmill therapy in children and adolescents with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2014;56(12):1172-9.
51. Borggraefe I, Kiwull L, Schaefer JS, Koerte I, Blaschek A, Meyer-Heim A, et al. Sustainability of motor performance after robotic-assisted treadmill therapy in children:

- an open, non-randomized baseline-treatment study. *Eur J Phys Rehabil Med.* 2010;46(2):125-31.
52. Breslow L. A quantitative approach to the World Health Organization definition of health: physical, mental and social well-being. *Int J Epidemiol.* 1972;1(4):347-55.
 53. CONSTITUTION of the World Health Organization. *Public Health Rep.* 1946;61:1268-79.
 54. Varni JW, Limbers CA, Burwinkle TM. Impaired health-related quality of life in children and adolescents with chronic conditions: a comparative analysis of 10 disease clusters and 33 disease categories/severities utilizing the PedsQL 4.0 Generic Core Scales. *Health Qual Life Outcomes.* 2007;5:43.
 55. Varni JW, Burwinkle TM, Lane MM. Health-related quality of life measurement in pediatric clinical practice: an appraisal and precept for future research and application. *Health Qual Life Outcomes.* 2005;3:34.
 56. Ingerski LM, Modi AC, Hood KK, Pai AL, Zeller M, Piazza-Waggoner C, et al. Health-related quality of life across pediatric chronic conditions. *J Pediatr.* 2010;156(4):639-44.
 57. Ravens-Sieberer U, Karow A, Barthel D, Klasen F. How to assess quality of life in child and adolescent psychiatry. *Dialogues Clin Neurosci.* 2014;16(2):147-58.
 58. Ravens-Sieberer U, Herdman M, Devine J, Otto C, Bullinger M, Rose M, et al. The European KIDSCREEN approach to measure quality of life and well-being in children: development, current application, and future advances. *Qual Life Res.* 2014;23(3):791-803.
 59. Schneider JW, Gurucharri LM, Gutierrez AL, Gaebler-Spira DJ. Health-related quality of life and functional outcome measures for children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2001;43(9):601-8.
 60. Narayanan UG, Fehlings D, Weir S, Knights S, Kiran S, Campbell K. Initial development and validation of the Caregiver Priorities and Child Health Index of Life with Disabilities (CPCHILD). *Dev Med Child Neurol.* 2006;48(10):804-12.
 61. Higginson IJ, Carr AJ. Measuring quality of life: Using quality of life measures in the clinical setting. *BMJ.* 2001;322(7297):1297-300.
 62. Skevington SM. Advancing cross-cultural research on quality of life: observations drawn from the WHOQOL development. *World Health Organisation Quality of Life Assessment. Qual Life Res.* 2002;11(2):135-44.
 63. Saxena S, Orley J, Group W. Quality of life assessment: The world health organization perspective. *Eur Psychiatry.* 1997;12 Suppl 3:263s-6s.
 64. Study protocol for the World Health Organization project to develop a Quality of Life assessment instrument (WHOQOL). *Qual Life Res.* 1993;2(2):153-9.
 65. The World Health Organization Quality of Life assessment (WHOQOL): position paper from the World Health Organization. *Soc Sci Med.* 1995;41(10):1403-9.
 66. Felce D, Perry J. Quality of life: its definition and measurement. *Res Dev Disabil.* 1995;16(1):51-74.
 67. Matza LS, Swensen AR, Flood EM, Secnik K, Leidy NK. Assessment of health-related quality of life in children: a review of conceptual, methodological, and regulatory issues. *Value Health.* 2004;7(1):79-92.
 68. Mueller-Godeffroy E, Thyen U, Bullinger M. Health-Related Quality of Life in Children and Adolescents with Cerebral Palsy: A Secondary Analysis of the DISABKIDS Questionnaire in the Field-Study Cerebral Palsy Subgroup. *Neuropediatrics.* 2016;47(2):97-106.

69. Chen KL, Wang HY, Tseng MH, Shieh JY, Lu L, Yao KP, et al. The Cerebral Palsy Quality of Life for Children (CP QOL-Child): evidence of construct validity. *Res Dev Disabil.* 2013;34(3):994-1000.
70. Eiser C, Morse R. A review of measures of quality of life for children with chronic illness. *Arch Dis Child.* 2001;84(3):205-11.
71. Solans M, Pane S, Estrada MD, Serra-Sutton V, Berra S, Herdman M, et al. Health-related quality of life measurement in children and adolescents: a systematic review of generic and disease-specific instruments. *Value Health.* 2008;11(4):742-64.
72. Varni JW, Katz ER, Seid M, Quiggins DJ, Friedman-Bender A, Castro CM. The Pediatric Cancer Quality of Life Inventory (PCQL). I. Instrument development, descriptive statistics, and cross-informant variance. *J Behav Med.* 1998;21(2):179-204.
73. Sprangers MA, Aaronson NK. The role of health care providers and significant others in evaluating the quality of life of patients with chronic disease: a review. *J Clin Epidemiol.* 1992;45(7):743-60.
74. Colver A, Group S. Study protocol: SPARCLE--a multi-centre European study of the relationship of environment to participation and quality of life in children with cerebral palsy. *BMC Public Health.* 2006;6:105.
75. Dickinson HO, Parkinson KN, Ravens-Sieberer U, Schirripa G, Thyen U, Arnaud C, et al. Self-reported quality of life of 8-12-year-old children with cerebral palsy: a cross-sectional European study. *Lancet.* 2007;369(9580):2171-8.
76. Colver A, Rapp M, Eisemann N, Ehlinger V, Thyen U, Dickinson HO, et al. Self-reported quality of life of adolescents with cerebral palsy: a cross-sectional and longitudinal analysis. *Lancet.* 2015;385(9969):705-16.
77. Jung NH, Brix O, Bernius P, Schroeder AS, Kluger GJ, Beyerlein A, et al. German translation of the caregiver priorities and child health index of life with disabilities questionnaire: test-retest reliability and correlation with gross motor function in children with cerebral palsy. *Neuropediatrics.* 2014;45(5):289-93.
78. Lokomat® System Benutzerhandbuch. In: Hocoma, editor. 2009.
79. Bohtz C, Meyer-Heim A, Min K. Changes in health-related quality of life after spinal fusion and scoliosis correction in patients with cerebral palsy. *J Pediatr Orthop.* 2011;31(6):668-73.
80. DiFazio RL, Miller PE, Vessey JA, Snyder BD. Health-Related Quality of Life and Care Giver Burden Following Spinal Fusion in Children With Cerebral Palsy. *Spine (Phila Pa 1976).* 2017;42(12):E733-E9.
81. DiFazio R, Shore B, Vessey JA, Miller PE, Snyder BD. Effect of Hip Reconstructive Surgery on Health-Related Quality of Life of Non-Ambulatory Children with Cerebral Palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 2016;98(14):1190-8.
82. Miyanji F, Nasto LA, Sponseller PD, Shah SA, Samdani AF, Lonner B, et al. Assessing the Risk-Benefit Ratio of Scoliosis Surgery in Cerebral Palsy: Surgery Is Worth It. *J Bone Joint Surg Am.* 2018;100(7):556-63.
83. Jung NH, Pereira B, Nehring I, Brix O, Bernius P, Schroeder SA, et al. Does hip displacement influence health-related quality of life in children with cerebral palsy? *Dev Neurorehabil.* 2014;17(6):420-5.
84. Thomason P, Tan A, Donnan A, Rodda J, Graham HK, Narayanan U. The Gait Outcomes Assessment List (GOAL): validation of a new assessment of gait function for children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2018;60(6):618-23.
85. Koenig H, Jelesch E, Warken B, Bernius P, Weinberger R, Küther G, Heinen F, Narayanan U, Weir S, Berweck S, Schroeder AS. Gait Outcome Assessment List: does the GOAL questionnaire allow patient oriented evaluation of ROBot-Enhanced

tReadmill Therapy (ROBERT-Program)? International Neurorehabilitation Symposium, Rehab Week 2017, Nr. 494, London UK.

86. Narayanan UG, Sponseller P, Newton PO, Marks MC. The CPCHILD Questionnaire is Sensitive to Change Following Scoliosis Surgery in Children with Cerebral Palsy: PAPER #62. Spine Journal Meeting Abstracts. 2011:86-7.

7.2 Abkürzungsverzeichnis

ADL = Activities of Daily Living (entspricht Section 1 des CPCHILD®: Aktivitäten des täglichen Lebens)

BoNT = Botulinumneurotoxin

BWSTT = Body Weight Supported Treadmill Training

bzw. = beziehungsweise

CE = Comfort & Emotions (entspricht Section 3 des CPCHILD®: Wohlbefinden und Gefühle)

COPM = Canadian Occupational Performance Measure

CP = Cerebralparese

CSI = Communication & Social Interaction (entspricht Section 4 des CPCHILD®: Kommunikation und soziale Interaktion)

CPCHILD® = Caregiver Priorities and Child Health Index of Life with Disabilities®

GMFCS = Gross Motor Function Classification System

GMFM = Gross Motor Function Measure

GOAL® = Gait Outcomes Assessment List

HrQoL = Health related Quality of Life

ICF = International Classification of Functioning, Disability and Health

ICP = Integrationszentrum für Cerebralparese

iSPZ = integriertes Sozialpädiatrisches Zentrum

MACS = Manual Ability Classification System

Overall QoL = Overall Quality of Life (entspricht Section 6 des CPCHILD®: Lebensqualität insgesamt)

PTM = Positioning, Transferring & Mobility (entspricht Section 2 des CPCHILD®: Positionierung, Transfer und Mobilität)

ROBERT = robot-enhanced repetitive treadmill therapy

SCPE = Surveillance of Cerebral Palsy in Europe

SDR = Selektive Dorsale Rhizotomie

UMN = Upper Motor Neuron

WHOQOL Group = World Health Organization Quality of Life Group

7.3 Abbildungsverzeichnis

Abbildung 1: Therapiekurven CP-Motorik von Heinen et al. (40)	16
Abbildung 2: Mittelwerte der CPCHILD®-Scores getrennt nach GMFCS-Level	40
Abbildung 3: Boxplots der CPCHILD®-Gesamtscores getrennt nach GMFCS-Level .	42
Abbildung 4: Boxplots der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie	44
Abbildung 5: Boxplots der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT	47
Abbildung 6: Boxplots der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und drei bis vier Monate nach ROBERT	50
Abbildung 7: Langzeitverlauf der CPCHILD®-Scores eines 4-jährigen Jungen des GMFCS-Level II	53
Abbildung 8: Langzeitverlauf der CPCHILD®-Scores eines 5-jährigen Mädchens des GMFCS-Level III	54
Abbildung 9: Langzeitverlauf der CPCHILD®-Scores eines 5-jährigen Jungen des GMFCS-Level II	55

7.4 Tabellenverzeichnis

Tabelle 1: Phänotypen der Cerebralpareesen nach SCPE-Klassifikation (2, 8).....	11
Tabelle 2: Das Gross Motor Function Classification System für Kinder von 6-12 Jahre (37)	13
Tabelle 3: Aufbau des CPCHILD®-Fragebogens.....	28
Tabelle 4: Demografische und klinische Eigenschaften des Patientenkollektivs.....	38
Tabelle 5: Übersicht Studiengruppen	39
Tabelle 6: Mittelwerte und 95%-Konfidenzintervalle der CPCHILD®-Scores getrennt nach GMFCS-Level.....	41
Tabelle 7: Kruskal-Wallis-Test der CPCHILD®-Scores über die GMFCS-Level II-IV	42
Tabelle 9: Korrelation zwischen GMFCS-Level und CPCHILD®-Scores nach Rangkorrelationskoeffizient Kendall-Tau-b (τ)	43
Tabelle 10: Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall und Standardabweichung der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie	45
Tabelle 11: Wilcoxon-Vorzeichenrangtest der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens im Abstand von drei Monaten unter Standardtherapie	46
Tabelle 12: Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall und Standardabweichung der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT	48
Tabelle 13: Wilcoxon-Vorzeichenrangtest der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und sechs bis neun Wochen nach ROBERT ..	49
Tabelle 14: Mittelwert, 95%-Konfidenzintervall und Standardabweichung der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und drei bis vier Monate nach ROBERT	51
Tabelle 15: Wilcoxon-Vorzeichenrangtest der CPCHILD®-Scores der Studiengruppe mit Beantwortung des Fragebogens vor und drei bis vier Monate nach ROBERT	52

7.5 Patientenfragebogen zur Erfassung der Lebensqualität: CPCHILD®

CPCHILD® Ein Index zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität bei Menschen mit Behinderung

Anleitung

1. In diesem Fragebogen geht es um die Gesundheit Ihres Kindes, sein Wohlbehagen und Wohlbefinden und um die Pflege Ihres Kindes.
2. Bitte lesen Sie die Anleitungen aufmerksam durch.
3. Bitte beantworten Sie alle Fragen, indem Sie die am besten zutreffende Zahl einkreisen. Kommentare oder Erklärungen können Sie in die freie Zeile unterhalb jeder Frage eintragen.

Beispiel:

GRAD DER HILFSTELLUNG

Überlegen Sie, wie jede der folgenden Aktivitäten normalerweise von bzw. mit Ihrem Kind ausgeführt wird. Bewerten Sie dann, wie schwierig die Ausführung jeder dieser Aktivitäten in den letzten 2 Wochen war, und wählen Sie den Grad an Hilfestellung , der nötig war, um Ihrem Kind bei der Durchführung der Aktivitäten zu helfen.							vollständig	mäßig	gering/zuschauend	unabhängig							
Wie schwierig war Folgendes in den letzten 2 Wochen :	nicht möglich	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	leicht	sehr leicht					völlig unproblematisch						
Anziehen/Tragen von Strümpfen, Schuhen, Schienen etc.	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3						
<i>Feld für Kommentare und Ergänzungen</i>																	

Im oben genannten Beispiel wurde das "Anziehen von Strümpfen und Schuhen" für das Kind als "sehr leicht" eingestuft. Das Kind benötigte dabei nur geringe Hilfe.

4. Am Ende jeden Fragebogenteiles ist Platz, um weitere Tätigkeiten und Aktivitäten hinzuzufügen, von denen Sie finden, dass sie in diesem Fragebogen fehlen oder die Sie für die Gesundheit, das Wohlbehagen und das Wohlbefinden Ihres Kindes als wichtig erachten.

Name des Kindes: _____

Name der Eltern
oder Pflegeperson, die den Bogen ausfüllt: _____

Datum: _____

Teil 1: KÖRPERPFLEGE / AKTIVITÄTEN DES TÄGLICHEN LEBENS
--

GRAD DER HILFSTELLUNG

Überlegen Sie, wie jede der folgenden Aktivitäten normalerweise von bzw. mit Ihrem Kind ausgeführt wird.

Bewerten Sie dann, wie **schwierig** die Ausführung jeder dieser Aktivitäten in den letzten 2 Wochen war,

und wählen Sie den **Grad an Hilfestellung**, der nötig war, um Ihrem Kind bei der Durchführung der Aktivitäten zu helfen.

Wie schwierig war Folgendes in **den letzten 2 Wochen**:

	<i>nicht möglich</i>	<i>sehr schwierig</i>	<i>schwierig</i>	<i>etwas schwierig</i>	<i>leicht</i>	<i>sehr leicht</i>	<i>völlig unproble- matisch</i>				
	0	1	2	3	4	5	6	vollständig	mässig	Gering/zuschauend	unabhängig
1 Essen/Trinken oder gefüttert werden (wie im Alltag gemacht wird z. B über den Mund oder über Sonde oder beides)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
2 Mundhygiene (Zähne putzen)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
3 Waschen/Baden	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
4 Toilettengang (Urinieren, Stuhlgang, Hygiene etc.)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
5 Wechseln der Unterwäsche, Windeln	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
6 An-/Ausziehen der Oberkörperbekleidung (T-Shirt, Jacke, etc.)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
7 An-/Ausziehen der Unterkörperbekleidung (Hose, Trainingshosen, etc.)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
8 Anziehen/Tragen von Strümpfen, Schuhen, Schienen etc.	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
9 Haarpflege (Waschen, Trocknen, Bürsten /Kämmen)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
1A Weitere Aktivitäten:	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3
1B Weitere Aktivitäten:	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3

Teil 2: POSITIONIERUNG, TRANSFER UND MOBILITÄT

GRAD DER HILFESTELLUNG

Überlegen Sie, wie jede der folgenden Aktivitäten normalerweise von bzw. mit Ihrem Kind ausgeführt wird.

Bewerten Sie dann, wie **schwierig** die Ausführung jeder dieser Aktivitäten in den letzten 2 Wochen war,

und wählen Sie den **Grad an Hilfestellung**, der nötig war, um Ihrem Kind bei der Durchführung der Aktivitäten zu helfen.

Wie schwierig war Folgendes in den letzten 2 Wochen:	<i>nicht möglich</i>	<i>sehr schwierig</i>	<i>schwierig</i>	<i>etwas schwierig</i>	<i>leicht</i>	<i>sehr leicht</i>	<i>völlig unproblematisch</i>	0	1	2	3	0	1	2	3
10 ins Bett legen/aus dem Bett aufstehen	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3	vollständig	mässig	Gering/zuschauend	unabhängig
11 Transfer in oder aus einem Stuhl/Rollstuhl	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
12 auf dem Stuhl/im Rollstuhl sitzen	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
13 Stehen (z. B. für Übungen, Transport)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
14 sich innerhalb der Wohnung bewegen (egal auf welche Art und Weise)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
15 sich draußen bewegen (egal auf welche Art und Weise)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
16 Ein- und Aussteigen in das/aus dem Fahrzeug (Auto, Transporter, Bus etc.)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
17 öffentliche Plätze besuchen (Park, Theater, Sehenswürdigkeiten etc.)	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
2A Weitere Aktivitäten:	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				
2B Weitere Aktivitäten:	0	1	2	3	4	5	6	0	1	2	3				

Teil 3: WOHLBEFINDEN UND GEFÜHLE

INTENSITÄT

Wie oft hatte Ihr Kind in den letzten 2 Wochen: Schmerzen oder fühlte sich unbehaglich oder unwohl		<i>jeden Tag</i>	<i>sehr oft</i>	<i>ziemlich oft</i>	<i>ein paar mal</i>	<i>ein- oder zweimal</i>	<i>nie</i>	sehr stark	mäßig	leicht	gar nicht
18	beim Essen/Trinken oder gefüttert werden	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
19	beim Toilettengang? (Urinieren, Stuhlgang, Hygiene, Wickeln, etc.)	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
20	beim An- und Auskleiden?	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
21	bei Transfers oder Lagewechseln?	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
22	Im Sitzen?	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
23	im Bett liegend?	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
24	So dass der Schlaf gestört wurde?	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
3A	während einer anderen Tätigkeit:	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
3B	während einer anderen Tätigkeit:	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
Wie oft war Ihr Kind in den letzten zwei Wochen..		<i>jeden Tag</i>	<i>sehr oft</i>	<i>ziemlich oft</i>	<i>ein paar mal</i>	<i>ein- oder zweimal</i>	<i>nie</i>	sehr stark	mäßig	leicht	gar nicht
25	aufgewühlt, aufgebracht, oder ärgerlich?	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3
26	unglücklich oder traurig?	0	1	2	3	4	5	0	1	2	3

Teil 4: KOMMUNIKATION UND SOZIALE INTERAKTION
--

Überlegen Sie, wie jede der folgenden Aktivitäten normalerweise von bzw. mit Ihrem Kind ausgeführt wird.

Bewerten Sie dann, wie **schwierig** die Ausführung jeder dieser Aktivitäten in den letzten 2 Wochen war,

und wählen Sie den **Grad an Hilfestellung**, der nötig war, um Ihrem Kind bei der Durchführung der Aktivitäten zu helfen.

Wie schwierig war es für Ihr Kind in <u>den letzten 2 Wochen</u>	<i>nicht möglich</i>	<i>sehr schwierig</i>	<i>schwierig</i>	<i>etwas schwierig</i>	<i>leicht</i>	<i>sehr leicht</i>
27 Sie zu verstehen?	0	1	2	3	4	5
28 sich Ihnen verständlich zu machen?	0	1	2	3	4	5
29 mit fremden Personen zu kommunizieren und zu verständigen?	0	1	2	3	4	5
30 alleine zu spielen?	0	1	2	3	4	5
31 mit anderen zu spielen?	0	1	2	3	4	5
32 die Schule oder eine andere Kinderbetreuungsstätte zu besuchen?	0	1	2	3	4	5
33 an Freizeitaktivitäten teilzunehmen (Schwimmen, mit Familie und Freunden spielen etc.)?	0	1	2	3	4	5
4A Weitere Gemeinschaftsaktivitäten:	0	1	2	3	4	5
4B Weitere Gemeinschaftsaktivitäten:	0	1	2	3	4	5

Teil 5: GESUNDHEIT

In den letzten zwei Wochen	<i>Bitte kreisen Sie die Antwort ein, die am besten zutrifft.</i>						
34	Wie oft musste Ihr Kind ins Krankenhaus oder zu einem Arzt?	<i>Stationär > 7 Tage</i>	<i>stationär < 7 Tage</i>	<i>dreimal oder öfter</i>	<i>zweimal</i>	<i>einmal</i>	<i>gar nicht</i>
		0	1	2	3	4	5

In den letzten zwei Wochen							
35	Wie bewerten Sie den allgemeinen Gesundheitszustand Ihres Kindes?	<i>sehr schlecht</i>	<i>schlecht</i>	<i>mittelmäßig</i>	<i>gut</i>	<i>sehr gut</i>	<i>ausge- zeichnet</i>
		0	1	2	3	4	5

36 Schreiben Sie die Medikamente auf, die Ihr Kind in den letzten zwei Wochen eingenommen hat:

0. Keine Medikamente

1. _____
2. _____
3. _____
4. _____
5. _____

Teil 6: LEBENSQUALITÄT IHRES KINDES INSGESAMT
--

In den letzten zwei Wochen							
37	Wie würden Sie insgesamt die Lebensqualität Ihres Kindes einschätzen?	<i>sehr schlecht</i>	<i>schlecht</i>	<i>mittel</i>	<i>gut</i>	<i>sehr gut</i>	<i>ausge- zeichnet</i>
		0	1	2	3	4	5

**Teil 7: WIE WICHTIG SIND DIE EINZELNEN ABGEFRAGTEN PUNKTE FÜR DIE
LEBENSQUALITÄT IHRES KINDES**

Bezogen auf das gegenwertige Befinden Ihres Kindes: Wie wichtig sind Ihrer Meinung nach die folgenden Unterpunkte für die Lebensqualität Ihres Kindes?		<i>gar nicht wichtig</i>	<i>nicht sehr wichtig</i>	<i>manchmal wichtig</i>	<i>eher wichtig</i>	<i>sehr wichtig</i>	<i>am wichtigsten</i>
1	Essen/Trinken oder gefüttert werden	0	1	2	3	4	5
							
2	Mundhygiene durchführen	0	1	2	3	4	5
							
3	Waschen/Baden	0	1	2	3	4	5
							
4	Toilettengang/Hygiene	0	1	2	3	4	5
							
5	Wechseln der Unterwäsche/ Windeln	0	1	2	3	4	5
							
6	An- und Ausziehen der Oberkörperbekleidung	0	1	2	3	4	5
							
7	An- und Ausziehen der Unterkörperbekleidung	0	1	2	3	4	5
							
8	Anziehen und Tragen von Strümpfen und Schuhen	0	1	2	3	4	5
							
9	Haarpflege	0	1	2	3	4	5
							
10	sich ins Bett legen oder aufstehen	0	1	2	3	4	5
							
11	Transfer in/aus einem Rollstuhl/Stuhl	0	1	2	3	4	5
							
12	Sitzen auf dem Stuhl/in dem Rollstuhl	0	1	2	3	4	5
							
13	Stehen für Übungen oder Transfer	0	1	2	3	4	5
							

14	sich in der Wohnung bewegen	0	1	2	3	4	5
							
15	sich draußen bewegen	0	1	2	3	4	5
							
16	Ein- und Aussteigen in/aus einem Fahrzeug	0	1	2	3	4	5
							
17	Besuch von öffentlichen Plätzen/ Veranstaltungen	0	1	2	3	4	5
							
18	sich wohl fühlen beim Essen	0	1	2	3	4	5
							
19	sich wohl fühlen beim Toilettengang	0	1	2	3	4	5
							
20	sich wohl fühlen beim An- und Ausziehen	0	1	2	3	4	5
							
21	sich wohl fühlen beim Transfer oder beim Wechseln der Körperposition	0	1	2	3	4	5
							
22	sich wohl fühlen im Sitzen	0	1	2	3	4	5
							
23	sich wohl fühlen im Liegen	0	1	2	3	4	5
							
24	sich wohl fühlen während des Schlafens	0	1	2	3	4	5
							
25	Stimmungslage oder Verhalten	0	1	2	3	4	5
							
26	Glücklichsein	0	1	2	3	4	5
							
27	Fähigkeit, Sie zu verstehen	0	1	2	3	4	5
							
28	Fähigkeit, sich Ihnen verständlich zu machen	0	1	2	3	4	5
							
29	Fähigkeit, sich mit anderen zu verständigen	0	1	2	3	4	5
							
30	Fähigkeit, alleine spielen zu können	0	1	2	3	4	5
							

31	Fähigkeit, mit anderen spielen zu können	0	1	2	3	4	5
							
32	Fähigkeit, die Schule oder eine andere Kinderbetreuungsstätte besuchen zu können	0	1	2	3	4	5
							
33	Fähigkeit, an Freizeitaktivitäten teilnehmen zu können	0	1	2	3	4	5
							
34	Arztbesuche und Krankenhausaufenthalte auf ein Minimum zu reduzieren	0	1	2	3	4	5
							
35	Gesundheit insgesamt	0	1	2	3	4	5
							
36	Die Anzahl der Medikamente auf ein Minimum zu reduzieren	0	1	2	3	4	5
							

7.6 Danksagung

Mein besonderer Dank gilt meinem Doktorvater Herrn PD Dr. med. Sebastian Schröder für die Überlassung des interessanten Themas, das entgegengebrachte Vertrauen und die herzliche Betreuung und Unterstützung während der gesamten Arbeit.

Bei Helene König und Birgit Warken möchte ich mich für die praktische Einführung in den Umgang mit dem Lokomat® und die gute Zusammenarbeit im Rahmen des ROBERT Programms bedanken.

Ich bedanke mich zudem sehr herzlich bei allen Familien, die bereit waren an unserer Studie teilzunehmen und damit diese Arbeit möglich gemacht haben.

Zuletzt, aber ganz besonders danke ich meiner Familie, die mir stets den Rückhalt und die Zuversicht gibt, meine Vorhaben zu meistern.

7.7 Eidesstattliche Versicherung

Sudhoff, Birte

Ich erkläre hiermit an Eides statt,
dass ich die vorliegende Dissertation mit dem Titel

„Motorik und Intervention – Einfluss auf die Lebensqualität bei Kindern mit Cerebralparese“

selbständig verfasst, mich außer der angegebenen keiner weiteren Hilfsmittel bedient und alle Erkenntnisse, die aus dem Schrifttum ganz oder annähernd übernommen sind, als solche kenntlich gemacht und nach ihrer Herkunft unter Bezeichnung der Fundstelle einzeln nachgewiesen habe.

Ich erkläre des Weiteren, dass die hier vorgelegte Dissertation nicht in gleicher oder in ähnlicher Form bei einer anderen Stelle zur Erlangung eines akademischen Grades eingereicht wurde.

Kaufbeuren, den 07.02.2021

Birte Maren Sudhoff