



**rijksuniversiteit
groningen**

**faculteit gedrags- en
maatschappijwetenschappen**

Motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie in beeld: een systematisch literatuuronderzoek

*Een bijdrage aan de theorievorming over de motorische ontwikkeling van kinderen met zeer
ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen*

Maaïke Kuiper (S4979281)
Faculteit der Gedrag- en maatschappijwetenschappen
Master Pedagogische Wetenschappen (track: Orthopedagogiek)

Eerste beoordelaar:	Prof. Dr. A.A.J. van der Putten
Tweede beoordelaar:	Dr. S. Houwen
Inleverdatum:	27 juli 2022
Aantal woorden:	12.045
Versie:	2



**rijksuniversiteit
groningen**

faculteit gedrags- en
maatschappijwetenschappen

Motor development of children with epilepsy in focus: a systematic literature review

*A contribution to theorization of the motor development of children with profound intellectual
and multiple disabilities*

Maaïke Kuiper (S4979281)

Abstract

The aim of this study was to generate more knowledge about the motor development of children with profound intellectual and multiple disabilities (PIMD) and related internal and external factors. As epilepsy is one of the most common additional health problems in children with PIMD, analyzing the motor development of children with epilepsy possibly contributes to increase knowledge about the motor development of children with PIMD. The databases ERIC, PsycINFO, Medline and Google Scholar were used for collecting data. To analyze the included studies, motor development was divided into three domains: coordination, gross motor development and fine motor development. A total of ten studies was retrieved. In six studies children with epilepsy achieved lower results on the motor tests than children without epilepsy. Studies on the relationship between motor skills and the internal factor intelligence contradicted, as well as the studies on the relationship between motor skills and the external factor treatment state. Overall results showed that the motor skills of children with epilepsy seems to be related to the severity of epilepsy. Children with more severe forms of epilepsy are more likely to have different or delayed motor skills. However, most studies analyzed the motor skills of children with epilepsy at one moment instead of analyzing the motor development. As a result, it is not possible to conclude how the motor development of children with epilepsy progresses. Based on the included studies, it can only be assumed that children with both epilepsy and PIMD are more likely to have a different motor development than children without disabilities. To be able to conclude how the motor development of children with PIMD progresses and which internal and external factors are related, it is necessary to do longitudinal research. More recommendations are given for both practice and science.

Keywords: motor development, motor skills, epilepsy, PIMD, children, internal factors, external factors

Samenvatting

Het doel van deze studie was om kennis over de motorische ontwikkeling van kinderen met zeer ernstig verstandelijke en meervoudige beperkingen (ZEVMB) en de daarmee samenhangende interne en externe factoren te vergroten. Epilepsie is één van de meest voorkomende bijkomende gezondheidsproblemen bij kinderen met ZEVMB, waardoor het analyseren van de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie kan bijdragen aan het vergroten van kennis over de motorische ontwikkeling van kinderen met ZEVMB. De data werden verzameld met behulp van de databases ERIC, PsycINFO, Medline en Google Scholar. Voor de analyse werd motorische ontwikkeling onderverdeeld in de domeinen houdingscoördinatie, grove motoriek en fijne motoriek. In totaal zijn tien studies geïnccludeerd. In zes studies behaalden kinderen met epilepsie lagere scores op de motorische testen dan kinderen zonder epilepsie. De resultaten van de studies over de relatie tussen motorische vaardigheden en cognitieve vaardigheden spraken elkaar tegen, net als de resultaten van de studies over de relatie tussen motorische vaardigheden en de behandelstatus van kinderen met epilepsie. De resultaten toonden aan dat de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie samen lijken te hangen met de ernst van de epilepsie. Kinderen met ernstigere vormen van epilepsie hebben vaker afwijkende of vertraagde motorische vaardigheden. De meeste geïnccludeerde studies analyseerden echter de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie op één moment in plaats van het verloop van de motorische ontwikkeling. Hierdoor is het niet mogelijk om te concluderen wat het verloop is van de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie. Op basis van de geïnccludeerde studies wordt vermoed dat kinderen met zowel epilepsie als ZEVMB zich waarschijnlijk afwijkend en trager ontwikkelen op het gebied van motoriek dan kinderen zonder beperkingen. Om te concluderen hoe de motorische ontwikkeling van kinderen met ZEVMB verloopt en welke interne en externe factoren gerelateerd zijn, is het van belang om longitudinaal onderzoek te doen. Meer aanbevelingen worden gegeven voor zowel de praktijk als de wetenschap.

Trefwoorden: motorische ontwikkeling, motorische vaardigheden, epilepsie, ZEVMB, kinderen, interne factoren, externe factoren

Motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie

De motorische ontwikkeling heeft een centrale rol in het leven van een kind (Libertus & Hauf, 2017). Motorische ontwikkeling wordt omschreven als een proces van voortdurende verandering in motorisch gedrag dat een persoon doormaakt gedurende zijn hele leven (Goodway et al., 2019; Utley, 2019). De motorische ontwikkeling komt tot stand door de interactie tussen de vereisten van bewegingstaken, de biologie van een persoon en de omstandigheden van de omgeving (Goodway et al., 2019). Tijdens het proces van de motorische ontwikkeling worden motorische vaardigheden verworven. Motorische vaardigheden zijn aangeleerde, doelgerichte bewegingstaken of handelingen van een of meer lichaamsdelen om een specifiek doel op een effectieve wijze te bereiken (Goodway et al., 2019; Utley, 2019). De ontwikkeling van motorische vaardigheden is van grote invloed voor het begrijpen van de wereld en vormt een sterke basis voor het sociaal en cognitief gedrag van mensen (Valadi & Gabbard, 2020). Motorische vaardigheden kunnen worden onderscheiden in houdingscoördinatie, grof-motorische vaardigheden en fijn-motorische vaardigheden (Gabbard, 2018). Houdingscoördinatie betreft het in balans houden van het lichaam (Gabbard, 2018). Grof-motorische vaardigheden gaan over een coördinatie tussen de armen, benen en andere grote lichaamsdelen om bijvoorbeeld te kunnen gooien, rennen en springen (Matheis & Estabillo, 2018). De fijn-motorische vaardigheden hebben betrekking op het maken van kleinere bewegingen tussen onder andere de vingers, om iets op te pakken of te schrijven. De motorische ontwikkeling verloopt normaal gesproken min of meer via vaste patronen, waarin motorische vaardigheden bereikt worden (De Bil & De Bil, 2007; Utley, 2019). Ondanks dat de motorische ontwikkeling veelal verloopt via vaste patronen, is er de nodige natuurlijke variatie tussen en binnen kinderen. Er zijn geen vaste leeftijden waarop kinderen bepaalde motorische vaardigheden bereiken, maar wanneer de motorische ontwikkeling binnen een bepaalde range valt wordt deze als normaal gezien (Edwards & Sarwark, 2005). Een voorbeeld hiervan is dat het ene kind kan kruipen op een leeftijd van 7 maanden, terwijl een ander kind pas kan kruipen op een leeftijd van 11 maanden. Deze variatie in leeftijd waarop kinderen kunnen kruipen, wordt volgens de WHO Multicentre Growth Reference Study Group (2006) op beide leeftijden als normaal beschouwd. Bij sommige kinderen vallen de te behalen motorische vaardigheden echter niet binnen de bepaalde range waarin de motorische ontwikkeling als normaal wordt beschouwd. Er kan dan sprake zijn van een vertraagde of afwijkende motorische ontwikkeling. Onder een vertraagde motorische ontwikkeling wordt verstaan dat de ontwikkeling trager verloopt, waarbij de motorische vaardigheden wel behaald worden, maar in een lager tempo. Met een afwijkende motorische ontwikkeling wordt bedoeld

dat motorische vaardigheden in een andere volgorde worden behaald, worden overgeslagen of zelfs nooit worden behaald (Haywood & Getchell, 2021; Slices, 2007).

Bij het ontwikkelen van motorische vaardigheden spelen zowel interne factoren als externe factoren een rol (Venetsanou & Kambas, 2009). Interne factoren hebben betrekking op de biologie van een individu. Interne factoren die een rol kunnen spelen bij de motorische ontwikkeling zijn onder andere genetische aanleg, leeftijd, geslacht en lichaamsgrootte (Malina, 2004; Venetsanou & Kambas, 2009). Er zijn daarbij enkele interne factoren die kunnen zorgen voor een vertraagde motorische ontwikkeling (Edwards & Sarwark, 2005). In het onderzoek van Edwards en Sarwark (2005) werden onder andere een normale en abnormale motorische ontwikkeling besproken. Zij vonden dat prematuriteit, een laag geboortegewicht en neurologische condities, zoals een epileptische stoornis, gerelateerd kunnen zijn aan een vertraagde motorische ontwikkeling. Ook intelligentie valt onder interne factoren. Van der Fels et al. (2015) hebben een literatuuronderzoek uitgevoerd om verbanden te vinden tussen de cognitieve vaardigheden en de motorische vaardigheden bij kinderen tussen de vier en zestien jaar oud. Gevonden is dat de fijne motoriek, de coördinatie van het lichaam en het tijdig uitvoeren van bewegingen vertonen de sterkste verbanden met cognitieve vaardigheden. Daarnaast is in dit onderzoek een sterk verband gevonden tussen het uitvoeren van complexe motorische vaardigheden en het gebruiken van hogere cognitieve vaardigheden: het uitvoeren van complexere motorische vaardigheden vereisen hogere cognitieve vaardigheden. Complexe motorische vaardigheden zijn bijvoorbeeld het uitvoeren van twee motorische handelingen tegelijkertijd, zoals met één hand tikken op het hoofd en met de andere hand rondjes draaien op de buik (Best, 2010). Onder hoge cognitieve vaardigheden wordt bijvoorbeeld het fluïd redeneren verstaan. Fluïd redeneren vereist hogere cognitieve vaardigheden die belangrijk zijn om complexere motorische vaardigheden uit te voeren (Van der Fels et al., 2015).

Naast interne factoren zijn er externe factoren die een rol spelen bij de motorische ontwikkeling. Eén van de externe factoren die een rol kan spelen bij de motorische ontwikkeling is de situatie waarin een kind opgroeit (Venetsanou & Kambas, 2009). Een positieve omgeving met betrekking tot de opvoeding waarin voldoende affectie is en voldoende vrijheid is om te experimenteren, lijkt een positieve invloed te hebben op het ontwikkelen van motorische vaardigheden (Hwang et al., 2013). Daarnaast concludeerden Boonzaaijer et al. (2020) dat wanneer een kind, zonder bijkomende beperkingen, meer wordt gestimuleerd door ouders op het gebied van motoriek, het kind meer en betere motorische vaardigheden laat zien. Ouders kunnen het kind stimuleren door bijvoorbeeld het kind in bepaalde posities te plaatsen, zodat hij moet bewegen. Naast het stimuleren van het kind kan ook de sociaal-economische status

van het gezin meespelen in het ontwikkelen van motorische vaardigheden (Venetsanou & Kambas, 2009). In de studie van Pereira et al. (2016) is gevonden dat een hoger inkomen van het gezin samenhangt met betere motorische prestaties van kinderen. Uit literatuuronderzoek van Venetsanou en Kambas (2009) blijkt dat kinderen uit gezinnen in de lagere sociale klasse slechter presteren op het gebied van motoriek ten opzichte van kinderen uit gezinnen in de middenklasse. Een andere externe factor die gerelateerd is aan een betere motorische ontwikkeling is het hebben van oudere broers of zussen, doordat het jongere kind zijn oudere broers of zussen kan imiteren (Rodrigues et al., 2021). Daarnaast is uit literatuuronderzoek van Venetsanou en Kambas (2009) gebleken dat onder andere het opleidingsniveau van de moeder en het aantal uren dat een kind doorbrengt op de kinderopvang externe factoren zijn die de motorische ontwikkeling van kinderen kunnen bevorderen of belemmeren. Uit de resultaten van dit onderzoek bleek bijvoorbeeld dat de kinderen van moeders met een hoger opleidingsniveau, zich eerder ontwikkelden op het gebied van fijne motoriek (Venetsanou & Kambas, 2009).

Zoals beschreven verloopt de ontwikkeling van motorische vaardigheden normaal gesproken min of meer via vaste patronen, maar dit geldt niet voor alle kinderen. Kinderen waarbij de motorische ontwikkeling veelal niet via vaste patronen verloopt, is bij kinderen met een beperking, waaronder bij kinderen met een zeer ernstige verstandelijke en meervoudige beperking (ZEVMB). Door de combinaties van de beperkingen is het een uitdaging om de precieze IQ-score te beoordelen van personen met een ZEVMB (Nakken & Vlaskamp, 2007). Er wordt daarom over een zeer ernstige verstandelijke beperking gesproken als het geschatte intelligentiequotiënt lager 20 à 25 punten is en de ontwikkelingsleeftijd maximaal 24 maanden is (Vugteveen et al., 2014). Daarnaast is bekend dat kinderen en volwassenen met een ZEVMB vrijwel altijd een aantal bijkomende medische problemen en/of neurologische ontwikkelingsproblemen ervaren, waardoor zij een kwetsbare groep vormen (Van Timmeren et al., 2016). Voorbeelden van deze bijkomende medische problemen of neurologische ontwikkelingsproblemen zijn zintuigelijke stoornissen, autisme en epilepsie (Arvio & Sillanpää, 2003; Cervantes & Mataon, 2015; Gustavson et al., (2005). Bovendien gaat bij deze kinderen en volwassenen de (zeer) ernstige verstandelijke beperking gepaard met ernstige motorische problemen (Nakken & Vlaskamp, 2007). Hoewel we weten dat kinderen en volwassenen met ZEVMB gekenmerkt worden door de ernstige motorische problemen, bestaat over deze motorische ontwikkeling en het verloop hiervan weinig kennis (Maes & Vlaskamp, 2020). Het is echter van groot belang om deze kennis te ontwikkelen, want het begrijpen van

de motorische ontwikkeling kan onder andere bijdragen aan het vinden en inzetten van juiste interventies en therapieën voor mensen met een beperking (Goodway et al., 2019).

Door Bossink et al. (2016) is benoemd dat de meeste personen met een ZEVMB een groot gedeelte van de dag in een rolstoel zitten, omdat zij meestal niet in staat zijn om te lopen. Ook het gebruik van de handen en armen is bij personen met ZEVMB beperkt. Sommige personen met een ZEVMB kunnen nog wel naar dingen grijpen of dingen vasthouden, maar anderen kunnen dit niet. Personen met een ZEVMB kunnen echter, ondanks hun beperking, wel motorische vaardigheden ontwikkelen (Van der Putten et al., 2005). In het onderzoek van van der Putten et al. (2005) werden kinderen met een ZEVMB herhaaldelijk gestimuleerd om bewegingen uit te voeren aan de hand van de bewegingsinterventie 'MOVE'. Nadat de kinderen deze interventie aangeboden kregen, was hun zelfstandigheid tijdens het uitvoeren van bewegingen verbeterd. Dit resultaat toont aan dat kinderen met een ZEVMB verbeteren in het zelfstandig uitvoeren van bewegingsactiviteiten wanneer zij functioneel gerichte activiteiten aangeboden krijgen (van der Putten et al., 2005). Voor het ontwikkelen en stimuleren van motorische vaardigheden zijn personen met een ZEVMB echter compleet afhankelijk van anderen (Van der Putten et al., 2016).

Ondanks dat we weten dat de motorische ontwikkeling van kinderen met een ZEVMB op een andere manier verloopt en zich hierbij problemen voordoen, is het niet duidelijk of er sprake is van een vertraagde of afwijkende motorische ontwikkeling (Visser et al., 2017). Volgens Visser et al. (2017) wordt gesproken van een vertraagde motorische ontwikkeling wanneer mensen met een beperking dezelfde vaardigheden ontwikkelen, maar op een lager tempo. Onder een afwijkende motorische ontwikkeling wordt verstaan dat er, naast de vertraging, een verschil zit in het verloop van de motorische ontwikkeling. Daarnaast weten we niet óf en hoe de bovengenoemde interne en externe factoren die een rol spelen bij de reguliere motorische ontwikkeling, gerelateerd zijn aan de motorische ontwikkeling van kinderen met een ZEVMB (Houwen et al., 2016).

Uit de literatuur blijkt dat bij mensen met een ZEVMB vaak sprake is van comorbiditeit (Poppes et al., 2016). Om een beeld te krijgen over hoe de motorische ontwikkeling van mensen met een ZEVMB verloopt en bij te dragen aan de wetenschappelijke theorie daarover, wordt de motorische ontwikkeling van verwante doelgroepen van ZEVMB in kaart gebracht. Het in kaart brengen van de motorische ontwikkeling van verwante doelgroepen kan bijdragen aan de kennisvergarig over de motorische ontwikkeling van ZEVMB, omdat deze ontwikkelingen mogelijk op bepaalde vlakken met elkaar overeenkomen.

Eén van de veelvoorkomende bijkomende gezondheidsproblemen bij mensen met een ZEVMB is epilepsie (Van Timmeren et al., 2016). Epilepsie komt bij circa 70% of meer van de mensen met een ZEVMB voor. Door de World Health Organization (2022) wordt epilepsie omschreven als een chronische, niet-overdraagbare aandoening in de hersenen, die voorkomt bij mensen van alle leeftijden. Epilepsie wordt gekenmerkt door terugkerende aanvallen (McMahan & Maricle, 2020). Het is een veelvoorkomende neurologische aandoening, waarbij de doelgroep bestaat uit een heterogene groep (Beckung & Uvebrant, 1993; Wheless, 2021). Epilepsie is een verzamelnaam voor de symptomen die duiden op een epileptische aanval. Kenmerken van epileptische aanvallen, die omschreven worden als korte episoden, zijn onder andere bewegingsstoornissen die een deel van het lichaam of het hele lichaam kunnen betreffen (World Health Organization, 2022). De verschijnselen van een epileptische aanval kunnen verschillen per persoon (Hendricks et al., 1999). Een epileptische aanval kan zorgen voor het verlies van het bewustzijn. Daarnaast kunnen mensen tijdens een epileptische aanval de controle verliezen over hun darm- of blaasfunctie (Daoud & Bayoumi, 2019; World Health Organization, 2022). Een mogelijk gevolg van een epileptische aanval is dat het kan zorgen voor een verminderd geheugen (Moffat et al., 2009). Naast dit neurologische gevolg, kan een epileptische aanval voor sociaal-emotionele gevolgen zorgen. Uit onderzoek van Conant et al. (2008) is gebleken dat kinderen met epilepsie zich door hun aanvallen ‘niet normaal’ voelen en weinig zelfvertrouwen hebben. Daarnaast wordt epilepsie in verband gebracht met cognitieve problemen en gedragsproblemen bij kinderen. Het onderzoek van Bhise et al. (2009) toont aan dat kinderen met epilepsie, met een normaal IQ, afwijkingen laten zien op onder andere de gebieden geheugen, motorische vaardigheden en aandacht.

Onder epilepsie vallen verschillende vormen, deze worden meestal aangeduid als syndromen van epilepsie. Daarnaast zijn er verschillende soorten epileptische aanvallen, meestal worden deze onderverdeeld als gegeneraliseerde- of focale aanvallen (Appleton & Marson, 2009). Epileptische aanvallen worden gegeneraliseerd genoemd wanneer bij een aanval de hele hersenen worden aangetast. Als de aanval één hersenhelft of een gebied van de hersenen aantast, wordt de aanval focaal genoemd (McMahan & Maricle, 2020). In de praktijk is het lastig om het onderscheid tussen ernstige of milde vormen van epilepsie te onderscheiden, maar Camfield en Camfield (2002) spreken over milde epilepsie gesproken wanneer de epileptische aanvallen niet frequent voorkomen en snel verdwijnen, zoals bij rolandische epilepsie. Daarnaast wordt er gesproken over milde epilepsie wanneer de epilepsie niet gepaard gaat met negatieve cognitieve of psychosociale effecten. Volgens Camfield en Camfield (2002) is sprake er van een ernstige vorm van epilepsie als er zeer frequent epileptische aanvallen

voorkomen, de epilepsie resistent is tegen behandeling en er door een epileptische aanval zowel cognitieve als psychosociale problemen ontstaan. Voornamelijk de mildere vormen van epilepsie komen voor bij kinderen, ernstigere vormen van epilepsie zijn zeldzaam. Het ontstaan van epilepsie kan veel verschillende oorzaken hebben (Appleton & Marson, 2009). Bij veel mensen met epilepsie heeft het een genetische oorzaak. Toch wordt slechts bij 1 op de 3 kinderen met epilepsie een oorzaak vastgesteld. Het merendeel van de oorzaken dat zorgt voor epilepsie, kan niet behandeld worden. De epilepsie zelf kan echter wel behandeld worden, waardoor het aantal epileptische aanvallen gecontroleerd kan worden. De behandeling van epilepsie kan verschillende vormen aannemen, bijvoorbeeld door medicatie, epilepsiechirurgie en zintuigstimulatie. Ook kan de behandeling bestaan uit psychologische behandelingen of een speciaal dieet, zoals het keto-dieet (Tatum et al., 2009). De epileptische aanvallen kunnen bij 2 op de 3 mensen met epilepsie volledig gecontroleerd worden, door middel van anti-epileptische medicatie (Laxer et al., 2014).

Zoals beschreven komt epilepsie veel voor bij mensen met een ZEVMB. Bovendien kunnen kinderen met epilepsie een afwijking laten zien op het motorisch gebied (Bhise, 2009). Door de motorische ontwikkeling van de doelgroep epilepsie te onderzoeken, kan wellicht een bijdrage worden geleverd aan het onderzoek naar de motorische ontwikkeling van mensen met ZEVMB. Tevens worden interne en externe factoren die gerelateerd zijn aan de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie in kaart gebracht. Het doel van dit onderzoek is het vergroten van kennis over de motorische ontwikkeling van mensen met een ZEVMB. Het uitvoeren van een literatuurstudie is hiervoor een passende methode, om een zo volledig mogelijk beeld te krijgen over de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie. De onderzoeksvraag die in dit onderzoek centraal staat luidt: *“Hoe verloopt de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie en welke interne- en externe factoren spelen hierbij een rol?”*

Methode

Zoekprocedure

Dit onderzoek betrof een systematische literatuurstudie. Met behulp van de elektronische zoekmachines ERIC, PsycINFO, Medline en Google Scholar is een systematische zoekprocedure uitgevoerd. De zoektermen die gebruikt zijn, hebben te maken met de motorische ontwikkeling en de doelgroep en zijn afgeleid uit genoemde termen in de inleiding. De hoofdterm was “motor”. De verschillende subtermen waren “development”, “skills”, “function”, “ability” en “milestones”. Daarnaast werd ook de doelgroep als subtermen toegevoegd, namelijk “epilepsy”, “epilepsy in children”, “children with epilepsy” en “children with seizures”. Deze zoektermen zijn samengevoegd tot één zoekstring, waarbij de zoektermen werden getrunceerd, om zo alle mogelijke varianten van de woorden te vinden. De gebruikte zoekstring is bijgevoegd in Bijlage A.

Na het invoeren van de zoekstring in de zoekmachines is het aantal hits dat naar voren gekomen is per zoekmachine genoteerd. Allereerst werd vanuit deze hits aan de hand van de titel, trefwoorden en samenvatting bepaald of het artikel voldeed aan de inclusiecriteria van dit onderzoek. Vervolgens werd van deze selectie de volledige tekst van de artikelen gelezen om te beoordelen of een artikel daadwerkelijk geïncludeerd werd in het onderzoek.

Inclusie- en exclusiecriteria

De artikelen zijn beoordeeld aan de hand van verschillende inclusie- en exclusiecriteria. Een eerste inclusie criterium dat mee is genomen is dat een artikel peer-reviewed moet zijn. Tevens moest het artikel gaan over de doelgroep kinderen met epilepsie van de leeftijd tot en met 18 jaar. Wanneer er meerdere doelgroepen naast kinderen met epilepsie in een studie zijn geïncludeerd, moesten de resultaten van de specifieke doelgroep “kinderen met epilepsie” zijn beschreven. Ook moeten de artikelen die geïncludeerd zijn, gaan over de motorische ontwikkeling en/of motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie. Wanneer een artikel informatie bevat over verschillende ontwikkelingsdomeinen, is er gekeken of het artikel specifieke informatie over de motorische ontwikkeling bevat, zodat het artikel meegenomen kon worden. “Specifieke informatie” hield in dat de resultaten voor de motorische ontwikkeling apart werden gepresenteerd. Daarnaast diende de volledige tekst van het artikel beschikbaar zijn en moest het artikel in het Engels of Nederlands geschreven zijn. Het exclusie criterium is dat er geen literatuurstudies zijn meegenomen, omdat dit onderzoek zelf een literatuurstudie betreft.

Analyse van de artikelen

Van elk geïncludeerd artikel zijn algemene gegevens zoals de auteur(s), het jaar van publicatie, het design, het doel van het onderzoek, de participanten, de gegevensverzameling en de resultaten afgeleid en opgenomen in de resultatentabel. Deze informatie is terug te vinden in Tabel 1. Om de onderzoeksvraag te beantwoorden is motoriek onderverdeeld in drie domeinen: houdingscoördinatie, grove motoriek en fijne motoriek. Daarnaast is bepaald welke interne factoren en externe factoren in de artikelen zijn bestudeerd. Over verloop van de motorische ontwikkeling zijn geen aparte analyses gedaan in deze review. Wanneer een studie de motorische ontwikkeling had onderzocht of conclusies trok over een vertraagde of afwijkende motorische ontwikkeling, is dit resultaat opgenomen in de resultatensectie. Wanneer studie die een vertraagd of afwijkend verloop van de motorische ontwikkeling vond, werd deze in de resultatentabel beschreven. Tevens zijn de vormen van epilepsie op basis van de informatie vanuit de inleiding en op basis van de beschrijvingen van de studies, onderscheiden in ernstig of mild. De informatie over de drie motorische domeinen, de bestudeerde interne- en externe factoren, de ernst van de epilepsie en het verloop van de motorische ontwikkeling is gebundeld tot één geheel en geeft een beeld over wat op dit moment bekend is in de wetenschappelijke literatuur over de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie.

Naast het analyseren van de inhoud van de geïncludeerde artikelen is de kwaliteit van de studies geanalyseerd met behulp van de Critical Review Form-Quantitative Studies (Law et al., 1998). Deze kwaliteitslijst bestaat uit 16 items, zoals het onderzoeksdoel, het literatuuronderzoek, de onderzoeksopzet, de steekproef, de uitkomsten, de interventie (wanneer toegepast), de resultaten, de conclusie en de klinische implicaties (Bijlage B). Wanneer een artikel voldeed aan het criterium dat werd gesteld, kreeg het een score van 1. Voldeed een artikel niet aan het gestelde criterium, kreeg het een score van 0. Als een bepaald criterium niet duidelijk naar voren kwam of niet toepasbaar was, kreeg het de score 'N/A'. Een artikel kon maximaal 16 punten scoren (15 wanneer geen interventie was toegepast). Artikelen met een score hoger of gelijk aan 12, werden beschouwd als artikelen met een hoge methodologische kwaliteit en een laag risico op bias. Artikelen met een score van lager of gelijk aan 7 werden beschouwd als artikelen met een verhoogd risico op bias en artikelen met een score tussen 8 en 11 werden beschouwd als artikelen met een gemiddeld risico op bias (Houwen et al., 2009).

Betrouwbaarheid

Om de betrouwbaarheid van de selectie van de geïnccludeerde artikelen te bepalen is de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid bepaald. Dit is gedaan door uit de hits een random steekproef van 10% te trekken die beoordeeld werden door een tweede onafhankelijke beoordelaar. Deze tweede onafhankelijke beoordelaar heeft de hits geselecteerd op basis van titel, trefwoorden en samenvatting. De betrouwbaarheid van deze selectie is berekend met Cohen's Kappa in SPSS, versie 28. Deze bedroeg 0.75 en wordt daarmee voldoende geacht. Ook is de betrouwbaarheid van de selectie van artikelen op basis van de volledige tekst berekend. Er waren op basis van titel, trefwoorden en samenvatting 100 artikelen geselecteerd. Om de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid te bepalen is een steekproef getrokken van 25%, wat 25 artikelen betrof. De artikelen uit deze steekproef zijn door een tweede onafhankelijke beoordelaar beoordeeld op basis van de volledige tekst aan de hand van de opgestelde inclusie- en exclusiecriteria. De Cohen's Kappa van deze interbeoordelaarsbetrouwbaarheid is 0.87 en is daarmee voldoende (Drenth & Sijtsma, 2006).

Ook is de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid bepaald. Dit is vrijwel op dezelfde wijze gebeurd als bij de meting van de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid, alleen herhaalde de eerste beoordelaar zelf beide selecties op basis van een random steekproef. Dit heeft één week na de eerste selectie plaatsgevonden. De intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid van de selectie van artikelen op basis van titel, sleutelwoorden en samenvatting bedroeg een Cohen's Kappa van 0.87. De intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid van de selectie van artikelen op basis van de volledige tekst had een Cohen's Kappa van 0.86. Beide selecties zijn hiermee voldoende betrouwbaar (Drenth & Sijtsma, 2006).

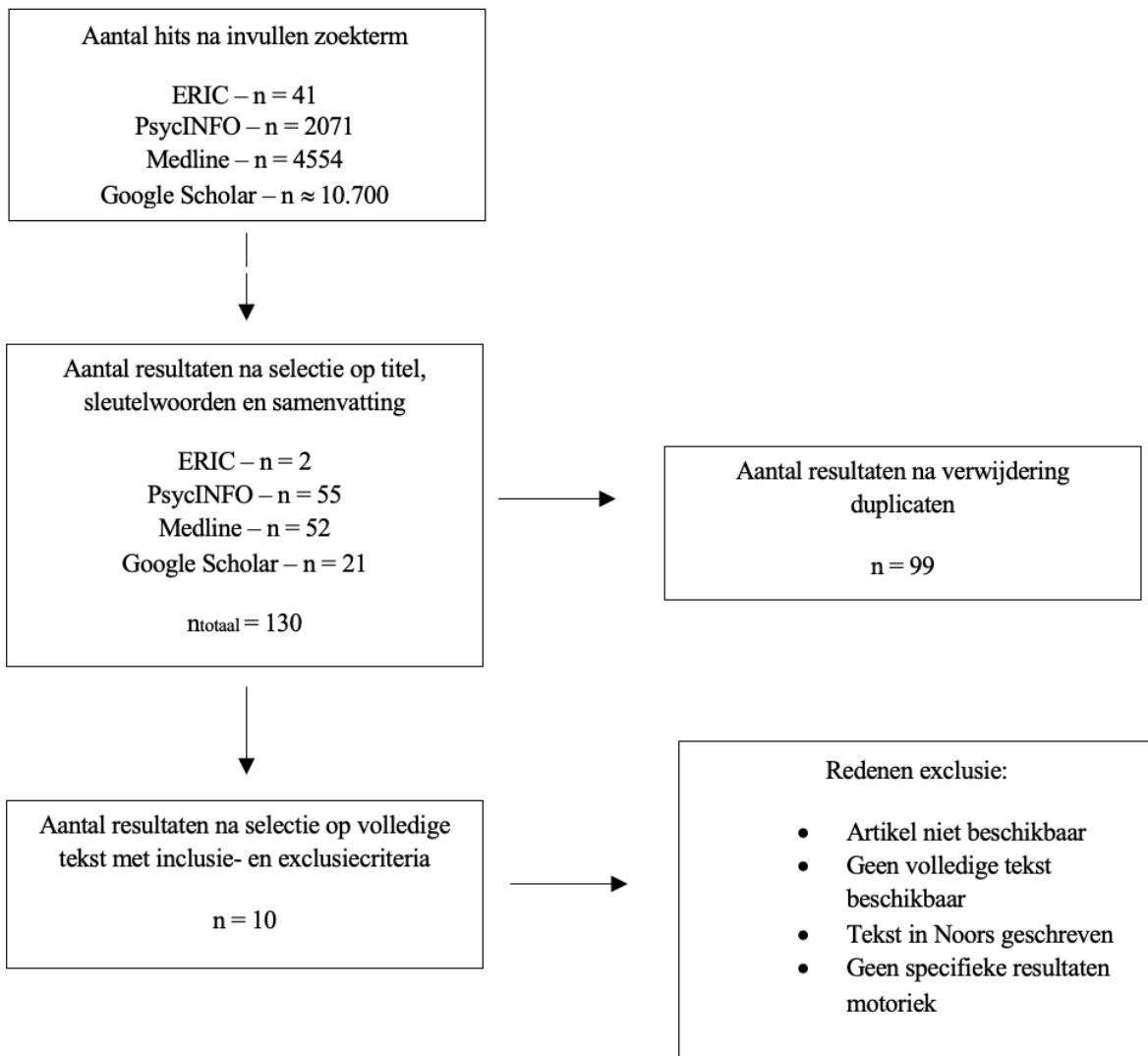
Naast de bepaling van de betrouwbaarheid voor de selectie van de artikelen, is de betrouwbaarheid van de kwaliteitsscores van de artikelen bepaald. Van de kwaliteitsscores van alle geïnccludeerde artikelen is zowel de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid als de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid bepaald. Dit is op dezelfde manier uitgevoerd als bij het bepalen van de betrouwbaarheid voor de selectie van de artikelen. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van de kwaliteitsscore had een Cohen's Kappa van 0.73. De intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid had een Cohen's Kappa van 0.87. Zowel de inter- als intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid wordt hiermee als voldoende beschouwd (Drenth & Sijtsma, 2006).

Resultaten

In totaal zijn er 10 studies geïnccludeerd voor dit onderzoek. In Figuur 1 is de procedure van de selectie te vinden. In Tabel 1 wordt een beknopt overzicht gegeven van de resultaten die voortvloeien vanuit de geïnccludeerde studies.

Figuur 1

Selectieprocedure en aantal resultaten



De omvang van de groepen participanten binnen vijf van de tien studies varieerde van 6 tot 140 kinderen, met leeftijden tussen de 16 maanden en 14 jaar. Vier studies hebben kinderen in de leeftijd tussen de 1 en 14 jaar onderzocht, één studie heeft kinderen met een gemiddelde leeftijd van 16 maanden onderzocht. Van vijf studies is de leeftijd van de kinderen die zijn onderzocht onbekend en wordt er alleen gesproken over kinderen. De studies zijn uitgevoerd tussen 1993 en 2020. In drie onderzoeken is het case control onderzoeksdesign gebruikt (Ayaz et al., 2013; Maalouf et al., 2006; Roy et al., 2011). Bij dit design werd de groep kinderen met epilepsie vergeleken met een groep kinderen zonder epilepsie. Daarnaast is het longitudinaal pre-post design in twee onderzoeken gebruikt (Beckung et al., 1994; Braathen et al., 1997) Hierbij werden groepen kinderen met epilepsie een langere tijd gevolgd na het ondergaan van bepaalde behandelingen van epilepsie. Een design dat in twee onderzoeken is gebruikt is het retrospectief dossieronderzoek (Verheyen et al., 2019; Verheyen et al., 2020). Bij deze onderzoeken werd de informatie vanuit medische dossiers tussen 1985 en 2019 van kinderen met epilepsie verzameld. Daarnaast is het cross-sectioneel design in twee onderzoeken gebruikt (Beckung & Uvebrant, 1993; Reijs et al., 2010). Tot slot heeft één onderzoek gebruik gemaakt van een prospectief gestandaardiseerd vergelijkend design (Boelen et al., 2005). Van de tien studies hebben vijf studies gebruik gemaakt van een controlegroep naast de groep kinderen met epilepsie. De controlegroepen werden meestal op basis van leeftijd, geslacht en/of het intelligentiequotiënt (IQ) geselecteerd. In twee van de tien studies zijn kinderen betrokken met het syndroom van Dravet, dit is een epileptische ontwikkelingsstoornis waarbij langdurig epileptische aanvallen voorkomen vanaf het eerste levensjaar (Verheyen et al., 2019; Verheyen et al., 2020). De overige acht studies verschilden allemaal wat betreft de vorm epilepsie van de betrokken kinderen. In Tabel 1 staan de auteurs, het onderzoeksdesign, het doel van het onderzoek, de participanten, de gegevensverzameling, de resultaten en de kwaliteitsscore weergegeven.

Tabel 1*Resultatentabel*

Auteur(s) en jaartal	Design	Doel	Participanten	Gegevensverzameling	Resultaten	Kwaliteits-score
Ayaz et al., (2013).	Case Control	Evalueren van fijne motorische vaardigheden van kinderen met rolandische epilepsie (RE) en analyseren of de motorische vaardigheden van RE samenhangen met cognitie.	Groep 1: n=44, leeftijd 8 tot 14 jaar, met RE, zonder verstandelijke beperking en andere chronische ziektes Groep 2: n=44, controlegroep zonder epilepsie.	Fijne motoriek: Purdue Pegboard Test (aantal pinnen binnen 30sec.). Intelligentie: Wechsler Intelligence Scale for Children- Revised.	Groep 1 < Groep 2, ongeacht het intelligentieniveau van de kinderen.	10
Beckung & Uvebrant (1993).	Cross-sectioneel	Motorische en sensorische functie van kinderen met ernstige onbehandelbare epilepsie evalueren om patronen van disfunctie te bepalen.	Ntotaal = 72 Groep 1: n=21, \times leeftijd=14.7 jaar, met epilepsie Groep 2: n=15, \times leeftijd=9.4 jaar, met epilepsie en CP of andere grote bewegingsstoornissen Groep 3: n=24, \times leeftijd=11.3 jaar, met epilepsie en verstandelijke beperking (vb) Groep 4: n=12, \times leeftijd=7.5 jaar, met epilepsie, CP en vb.	Voorschoolse kinderen (n=16): Cailler-Azusa Scale (Harris et al., 1983), meet de leeftijd van behalen motorische mijlpalen. Grove motoriek werd gefilmd en geanalyseerd. Voor schoolgaande kinderen (n=56): Grove motoriek: een zelfontworpen standaard fysiotherapie beoordelingsprotocol. Score a.d.h.v. vier-puntsschaal, 47 items. Fijne motoriek en coördinatie: 'Test of Motor Impairment' (Stott et al., 1984) en de 'Bruininks-Oseretsky Test' (Bruininks, 1978) gebruikt.	Groep 1: 7/21 normale motorische en sensorische vaardigheden. Groep 2: 0/15 normale motorische en sensorische vaardigheden. Groep 3: bijna alle kinderen waren traag en onhandig. Groep 4: 12/12 waren kinderen met meervoudige beperkingen en erg verzwakte tot geen motorische vaardigheden.	8
Beckung et al., (1994).	Longitudinaal met drie metingen voor en na operatie	Analyse van het effect van epilepsiechirurgie op het sensomotorisch functioneren van kinderen.	N=50, test voor operatie (meting 1) N=50, test 6 mnd na operatie (meting 2) N=34, test 2 jaar na operatie (meting 3)	Kinderen < 7 jaar: the Cailler-Azusa Scale (Harris et al., 1983). Kinderen \geq 7 jaar: zelfontworpen standaard fysiotherapie beoordelingsprotocol voor kwaliteit en niveau van sensomotorische functies. Score aan de hand van vier-puntsschaal.	Meting 1 < Meting 2 & Meting 3 bij N=36. Meting 1 > Meting 2 & 3 bij N=6.	10

Boelen et al., (2005)	Prospectief gestandaardiseerd, niet-gerandomiseerd en open klinisch vergelijkend design met twee groepen.	Analyse van effect cryptogene of idiopathische epilepsie op het gebied van houdingscoördinatie en grove- en fijne motorische vaardigheden.	Groep 1: n=87 met leeftijd tussen 1.9 jaar en 12.11 jaar met epilepsie Groep 2: n=107, $\times_{\text{leeftijd}}=8.4$ jaar, zonder epilepsie.	The Movement ABC (Henderson, 1987).	The Movement ABC: groep 1 = groep 2.	13
Braathen et al., (1997).	Pro-post design.	Onderzoek of grove en fijne motorische prestaties worden aangetast bij kinderen met epilepsie die worden behandeld met carbamazepine.	N=19, leeftijd tussen 6.6 – 14.4 jaar, met epilepsie.	Meetmoment 1: voor behandeling met carbamazepine Meetmoment 2: 6 maanden later, na behandeling met carbamazepine. Meetinstrument: Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency (Bruininks, 1978). Verdeeld in grove motorische functies en fijn-motorische functies.	Grove motoriek: meetmoment 1 = meetmoment 2. Fijne motoriek: meetmoment 1 < meetmoment 2.	10
Maalouf et al., (2006).	Case control design	Onderzoek of motorische prestaties en aanpassing van reikbewegingen verslechterd zijn bij kinderen met goedaardige focale epilepsie.	Groep 1: n=6 kinderen, met focale epilepsie Groep 2: n=30, zonder epilepsie. Alle kinderen waren rechtshandig. Jongens en meisjes waren gelijk verdeeld in elke groep.	Gegevens werden verzameld door beide groepen te testen met behulp van de Phantom Haptic Robot 3.0. Hiermee werden het traject en de snelheid van hun reikbewegingen gemeten in verschillende omstandigheden.	Groep 1 < Groep 2.	9
Reijs et al., (2010).	Systematisch cross-sectioneel, niet-gerandomiseerd design.	Onderzoeken of CLRE (cryptogene lokalisatie gerelateerde epilepsie) of de bijbehorende specifieke leerproblemen samenhangen met de optredende problemen in het motorisch functioneren.	Ntotaal = 140 kinderen Groep 1: n=67, met CLRE en met/zonder leerproblemen Groep 2: n=73, zonder CLRE en met/zonder leerproblemen	Cognitie/leermoeilijkheden: WISC-RN. Motorisch functioneren: Movement ABC (Smits-Engelsman, 1998).	Er is een verzwakte motorische functie geobserveerd bij 24 kinderen met CLRE. Geen significant verschil met controlegroep. Geen correlatie gevonden tussen specifieke leerproblemen of epilepsie en het	10

Roy et al., (2011)	Case Control Design	Het onderzoeken van de neuropsychologische gevolgen van een enkele status epilepticus (SE) bij kinderen zonder hersenaandoening en ontwikkelingsachterstand.	Groep 1: n=18, $\times_{leeftijd}=16.33$ mnd met status epilepticus. Groep 2: controlegroep, n=34, $\times_{leeftijd}=13.89$ mnd zonder neurologische- of ontwikkelingsachterstanden.	Gebruik gemaakt van de Griffiths Mental Development Scales (Griffiths, 1976). Meet ontwikkelingsnelheid op alle ontwikkelingsgebieden van kinderen vanaf de geboorte tot 8 jaar.	motorisch functioneren bij kinderen met CLRE. Groep 1 < groep 2. Groep 1 scoorde hoger dan de algemene gemiddelde testscore.	10
Verheyen et al., (2019).	Retrospectief dossieronderzoek.	Het beschrijven van het verloop van de motorische ontwikkeling van kinderen met het syndroom van Dravet.	N=43, met syndroom van Dravet.	Data (motorische ontwikkelingsbeoordelingen a.d.h.v. verschillende testen) is verzameld uit de medische dossiers. De scores van de participanten op verschillende motorische testen zijn verzameld vanuit de dossiers en geanalyseerd. De scores zijn vergeleken met de normen van de WHO.	In de grove motoriek is een significant verschil gevonden in leeftijd waarop kinderen kunnen zitten en zelfstandig kunnen lopen tussen de kinderen met het syndroom van Dravet en de standaardnormgegevens van de WHO. Dravet < Standaardnorm WHO.	11
Verheyen et al., (2020).	Retrospectief dossieronderzoek.	Analyse van relatie tussen cognitieve en motorische ontwikkeling bij kinderen met het syndroom van Dravet.	N=33 met het syndroom van Dravet. Bij 28 kinderen was duidelijk op welke leeftijd zij zelfstandig konden lopen.	Data (cognitieve- en motorische ontwikkelingsbeoordelingen a.d.h.v. verschillende testen en leeftijd van zelfstandig lopen) is retrospectief verzameld uit de medische dossiers van de participanten. Deze resultaten zijn vergeleken met de normale cognitieve en motorische ontwikkelingsleeftijd, afgeleid van de Bayley Scales of Infant Development.	Bij 20 kinderen sterke relatie gevonden tussen de cognitieve en motorische ontwikkeling. Leeftijd van het zelfstandig lopen wordt significant geassocieerd met de cognitieve ontwikkeling. Een latere leeftijd van zelfstandig lopen wordt geassocieerd met een lager IQ. Van de 28 kinderen hadden 16 kinderen een vertraging wat betreft zelfstandig lopen.	11

De informatie uit Tabel 1 geeft een beknopt overzicht van de gevonden resultaten. In het volgende stuk zullen de resultaten verder worden toegelicht. Motoriek zal worden opgedeeld in drie domeinen: houdingscoördinatie, grove motoriek en fijne motoriek. Daarnaast zal de informatie over de bestudeerde interne factoren en externe factoren worden toegelicht. In Tabel 2 staat een overzicht van de ernst van de vorm epilepsie in relatie tot het motorisch functioneren van kinderen met epilepsie.

Kwaliteit van de geïncludeerde artikelen

Van de tien geïncludeerde studies is de kwaliteit bepaald met behulp van de Critical Review Form-Quantitative Studies (Law et al., 1998). Per studie zijn de toegekende punten vermeld in de resultatentabel bij de kolom “Kwaliteitsscore”. Negen studies hebben een score tussen de 8 en 11 punten, wat maakt dat deze studies een gemiddeld risico op bias hebben (Ayaz et al., 2013; Beckung & Uvebrant, 1993; Beckung et al., 1994; Braathen et al., 1997; Maalouf et al., 2006; Reijs et al., 2010; Roy et al., 2011; Verheyen et al., 2019; Verheyen et al., 2020). Eén studie heeft een kwaliteitsscore van 13 (Boelen et al., 2005), waarmee deze studie een laag risico op bias heeft (Houwen et al., 2009).

Houdingscoördinatie

De houdingscoördinatie betreft het in balans houden van het lichaam (Gabbard, 2018). Twee van de tien studies hebben de houdingscoördinatie van kinderen met epilepsie bestudeerd (Beckung & Uvebrant, 1993; Boelen et al., 2005). In het onderzoek van Beckung en Uvebrant (1993) zijn vier groepen kinderen met onbehandelbare epilepsie onderzocht. Onbehandelbare epilepsie is een ernstige vorm van epilepsie, gezien deze vorm resistent is tegen behandeling (Camfield & Camfield, 2002). Daarnaast hebben de participanten een ernstige vorm van epilepsie, omdat de epilepsie bij drie groepen gepaard gaat met bijkomende problematiek. Het doel van dit onderzoek was om de motorische en sensorische functies van deze doelgroep in kaart te brengen, om zo patronen van disfuncties te bepalen. Om de houdingscoördinatie van deze groepen in kaart te brengen is gebruik gemaakt van de Cailler-Azusa Scale, de Test of Motor Proficiency en de Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency. De eerste groep kinderen bestond uit kinderen met alleen onbehandelbare epilepsie. Van de 21 kinderen uit de eerste groep, hadden 9 kinderen evenwichtsproblemen. De tweede groep bestond uit 15 kinderen met onbehandelbare epilepsie, cerebrale parese (CP) en andere bewegingsstoornissen. Van de 15

kinderen uit de tweede groep, waren er 14 met evenwichtsproblemen. De derde groep bestond uit kinderen met onbehandelbare epilepsie en een verstandelijke beperking. Deze derde groep bestond uit 24 kinderen, waarvan 18 kinderen evenwichtsproblemen hadden. De vierde en tevens laatste groep bestond uit 12 kinderen met onbehandelbare epilepsie, CP en een verstandelijke beperking. Alle kinderen uit de vierde groep hadden evenwichtsproblemen. Het onderzoek van Boelen et al. (2005) had als doel om het effect van cryptogene of idiopathische epilepsie op het gebied van houdingscoördinatie, grove motorische vaardigheden en fijne motorische vaardigheden te analyseren. Cryptogene of idiopathische epilepsie worden bij de participanten van dit onderzoek gezien als een milde vorm, omdat zij geen bijkomende cognitieve of psychosociale problemen ervaren (Camfield & Camfield, 2002). In dit onderzoek is een groep van 87 kinderen met epilepsie tussen de 1;9 en 12;11 jaar vergeleken met een groep van 107 kinderen zonder epilepsie met een gemiddelde leeftijd van 8;4 jaar. Om onder andere de houdingscoördinatie te analyseren is de Movement ABC afgenomen bij beide groepen kinderen. Om de houdingscoördinatie te meten is de subtest “statisch en dynamisch” evenwicht afgenomen. Uit de resultaten van dit onderzoek blijkt dat kinderen met ongecompliceerde epilepsie nagenoeg dezelfde score behalen op de subtest “statisch en dynamisch evenwicht” van de Movement ABC als de kinderen zonder epilepsie.

Grove motoriek

De grove motoriek heeft betrekking op de coördinatie tussen de armen, benen en andere grote lichaamsdelen om bijvoorbeeld te kunnen gooien, rennen en springen (Matheis & Estabillo, 2018). In totaal hebben zes studies onder meer de grove motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie onderzocht (Boelen et al., 2005; Maalouf et al., (2006); Reijs et al., (2010); Roy et al., (2011); Verheyen et al., (2019); Verheyen et al., 2020).

Boelen et al. (2005) hebben de grove motorische vaardigheden van kinderen met cryptogene of idiopathische epilepsie onderzocht en vond dat kinderen met epilepsie dezelfde grove motorische vaardigheden lijken te beheersen als kinderen zonder epilepsie. Om de grove motoriek van de participanten in kaart te brengen hebben zij de Movement ABC afgenomen. Kinderen met epilepsie hadden nagenoeg dezelfde totaalscore op de Movement ABC. Er zijn geen verschillen gevonden in de handvaardigheid, balvaardigheid. In het onderzoek van Reijs et al. (2019) zijn de grove motorische vaardigheden van een groep van 67 kinderen met cryptogene lokalisatie gerelateerde epilepsie (CRLE) vergeleken met de grove motorische vaardigheden van een groep van 73 kinderen zonder epilepsie. CRLE kan zowel een milde als

een ernstige vorm van epilepsie zijn, afhankelijk van hoe frequent de epileptische aanvallen voorkomen (Camfield en Camfield, 2002). Van de participanten met CLRE in dit onderzoek waren er op basis van de frequentie van de epileptische aanvallen 24 kinderen met milde epilepsie en 27 kinderen met ernstige epilepsie. Van 16 kinderen was onbekend hoe frequent de epileptische aanvallen voorkomen en kan niet gezegd worden wat de ernst van de epilepsie was. In dit onderzoek is ook de Movement ABC gebruikt om de grove motoriek te meten bij de twee groepen. Er is geen significant verschil in de totale score van de kinderen met CRLE op de Movement ABC gevonden met de controlegroep zonder epilepsie. Wel is bij 24 kinderen met CRLE in dit onderzoek een verzwakte en daarmee afwijkende motorische functie geconstateerd, zij scoorden lager dan het vijfde percentiel op totale score van de Movement ABC. Het is niet duidelijk hoe ernstig deze verzwakte functie was en of de desbetreffende kinderen een milde of ernstige vorm van epilepsie hadden.

In het onderzoek van Maalouf et al. (2006) werden de armbewegingen van een groep van 6 kinderen met goedaardige focale epilepsie gemeten. Focale epilepsie is een milde vorm van epilepsie, omdat de epileptische aanvallen niet frequent voorkomen en de epilepsie veelal voor de volwassenheid spontaan verdwijnt (Camfield & Camfield, 2002; Maalouf et al., 2006). Daarnaast werden dezelfde armbewegingen van een controlegroep van 30 kinderen zonder epilepsie gemeten. De resultaten van deze twee groepen werden met elkaar vergeleken. De armbewegingen werden gemeten door middel van de snelheid van de reikbewegingen. De reikbewegingen die de kinderen moesten maken werden beoordeeld onder verschillende omgevingsbeperkende situaties die werden opgelegd door de Phantom Haptic Robot 3.0. Een voorbeeld van een omgevingsbeperking is dat de Phantom Haptic Robot 3.0 meer tegengewicht kon geven aan de kinderen, waardoor zij meer kracht moesten zetten. De kinderen met epilepsie deden langer over het uitvoeren van de bewegingen dan de kinderen uit de controlegroep. Daarnaast lieten kinderen met epilepsie een verminderde aanpassing zien wat betreft het motorisch leren wanneer er een onverwachte verstoring in de omgeving was. De reikbeweging van kinderen met epilepsie verbeterden alleen bij herhaalde blootstelling aan een constante, voorspelbare verstoring. Hieruit trekken onderzoekers de conclusie dat de motorische functie verminderd is bij kinderen met goedaardige focale epilepsie, ondanks dat ze in staat zijn de opdrachten uit te voeren (Maalouf et al., 2006).

Het onderzoek van Roy et al. (2011) onderzocht de psychomotorische vaardigheden van kinderen die een enkele status epilepticus hebben gehad op jonge leeftijd, zodat de neuropsychologische gevolgen duidelijk werden. Een enkele status epilepticus wordt gezien als een milde vorm van epilepsie, omdat de epileptische aanval maar één keer is voorgekomen

(Camfield & Camfield, 2002). De psychomotorische vaardigheden van kinderen die een enkele status epilepticus hebben gehad werden vergeleken met een controlegroep die bestond uit kinderen zonder neurologische problemen ontwikkelingsachterstanden. Psychomotorische vaardigheden is een verzamelnaam voor bewegingen die de psychische situatie van iemand uitdrukken (Hindmarch, 2014). De psychomotorische vaardigheden werden gemeten met behulp van de Griffiths Mental Development Scales. Dit meetinstrument meet de psychomotorische mogelijkheden van baby's en jonge kinderen in vijf domeinen, waaronder de motorische vaardigheden, de hand-oogcoördinatie en prestaties (het vermogen van baby's om eenvoudige taken uit te voeren waarbij gebruik gemaakt wordt van doelbewuste manipulatie). De scores van de kinderen met een enkele status epilepticus zijn lager dan de scores van de controlegroep op het motorisch gebied, de hand-oogcoördinatie en op het prestatiegebied. Echter zijn deze scores niet lager dan de algemene gemiddelde scores van deze test, waardoor niet gesproken kan worden van een motorische vertraging bij kinderen met een enkele status epilepticus.

Het doel van het onderzoek van Verheyen et al. (2019) was de motorische ontwikkeling van kinderen met het syndroom van Dravet te beschrijven. Het syndroom van Dravet wordt omschreven als een ernstige vorm van epilepsie, omdat er frequent epileptische aanvallen en het syndroom vaak resistent is tegen behandeling (Dravet et al., 2011). Uit het onderzoek van Verheyen et al. (2019) is gebleken dat kinderen met het syndroom van Dravet een vertraging laten zien betreft het zelfstandig kunnen zitten. Uit deze studie bleek dat kinderen met het syndroom van Dravet gemiddeld genomen zelfstandig kunnen zitten wanneer zij 8.5 maanden oud zijn. Volgens de normen van de WHO kunnen kinderen normaal gesproken zelfstandig zitten op een gemiddelde leeftijd van 5.9 maanden. Daarnaast laten kinderen met het syndroom van Dravet een vertraging zien in de leeftijd waarop zij zelfstandig kunnen lopen. Volgens de normen van de WHO kunnen kinderen normaal gesproken zelfstandig lopen op een leeftijd van 12 maanden. De kinderen met het syndroom van Dravet uit het onderzoek van Verheyen et al. (2019) kunnen zelfstandig lopen op een gemiddelde leeftijd van 16 maanden.

Fijne motoriek

De fijne motoriek heeft betrekking op het maken van kleinere bewegingen tussen bijvoorbeeld de vingers, om iets op te pakken of te schrijven (Gabbard, 2018). Vijf studies hebben de fijne motoriek van kinderen met epilepsie onderzocht. In het onderzoek van Ayaz et al. (2013) scoorden de groep kinderen met rolandische epilepsie (RE) slechter dan de controlegroep die

bestond uit kinderen zonder epilepsie op het gebied van fijne motoriek. Rolandische epilepsie is een goedaardige vorm van epilepsie en wordt daardoor gezien als een milde vorm, omdat de meeste kinderen geen andere klachten en/of neurologische problemen ervaren (Camfield & Camfield, 2002). De fijne motoriek van de kinderen uit beide groepen werd gemeten met behulp van de Purdue Pegboard Test. Bij deze test moeten kinderen zoveel mogelijk pinnen op een bord proberen te plaatsen binnen 30 seconden. De test werd vier keer uitgevoerd, één keer met de dominante hand, één keer met de non-dominante hand, één keer met beide handen en er werd een montagetest uitgevoerd, waarbij de kinderen de pinnen vast moesten maken. De kinderen met RE scoorden lager op de test bij de dominante hand, beide handen en de montagetest. Dit onderzoek stelt dat RE een negatief effect heeft op de fijne motoriek. Daarnaast wordt door Beckung en Uvebrant (1993), waarin zij vier groepen kinderen met epilepsie en bijkomende problematiek hebben onderzocht, gesteld dat kinderen met ernstige en onbehandelbare epilepsie een verminderde fijne motoriek hebben. Om de fijne motoriek te meten hebben zij de kracht en precisie van vier verschillende grepen getest (Sollerman, 1980). Daarnaast hebben zij de snelheid en coördinatie van de fijne motoriek getest met behulp van de Test of Motor Impairment en de Bruininks-Oseretsky Test (Stott et al., 1984; Bruininks, 1978).

De eerste groep kinderen bestond uit 21 kinderen met alleen onbehandelbare epilepsie, waarvan 7 kinderen verminderde fijne motorische vaardigheden hadden. De tweede groep bestond uit 15 kinderen met onbehandelbare epilepsie, cerebrale parese (CP) en andere bewegingsstoornissen. Van de 15 kinderen uit de tweede groep, waren de fijne motorische vaardigheden aangetast. De derde groep bestond uit kinderen met onbehandelbare epilepsie en een verstandelijke beperking. Deze derde groep bestond uit 24 kinderen, waarvan 20 kinderen een fijne motorische stoornis hadden. De vierde en tevens laatste groep bestond uit 12 kinderen met onbehandelbare epilepsie, CP en een verstandelijke beperking. Alle kinderen uit de vierde groep hadden verminderde motorische vaardigheden.

Boelen et al. (2005) hebben gevonden dat kinderen met cryptogene of idiopathische epilepsie geen verminderde fijne motoriek hebben ten opzichte van de controlegroep. De fijne motoriek is gemeten met behulp van de Measures for psychomotor speed, met de subtesten “tikken dominante hand” en “tikken non-dominante hand”. Er waren nauwelijks verschillen te zien in de scores van de kinderen met epilepsie en de controlegroep wat betreft het tikken met de vingers. Echter lieten alle testen voor de psychomotorische snelheid zien dat kinderen met epilepsie een langzamere reactie hebben wanneer zij moeten reageren op een bepaalde stimulus met hun dominante en non-dominante hand (Boelen et al., 2005). In het onderzoek van Reijs et al. (2019) is een groep van 67 kinderen met cryptogene lokalisatie gerelateerde epilepsie

(CRLE) vergeleken met een groep van 73 kinderen zonder epilepsie. In dit onderzoek is ook de Movement ABC gebruikt om onder andere de fijne motoriek te meten bij de twee groepen. Er is in dit onderzoek geen verschil gevonden tussen de twee groepen wat betreft de scores op het gebied van de fijne motoriek.

In onderzoek naar de beschrijving van de motorische ontwikkeling van kinderen met het syndroom van Dravet waren de data over de fijne motorische ontwikkeling beschikbaar voor 13 kinderen (Verheyen et al., 2019). De data van deze studie zijn retrospectief verzameld uit de medische dossiers van kinderen met het syndroom van Dravet. De data bestonden uit resultaten van verschillende motorische testen die de kinderen met het syndroom van Dravet hebben uitgevoerd. Van 18 kinderen met het syndroom van Dravet waren er data beschikbaar over hun fijne motorische vaardigheden. Voor het meten van de fijne motoriek zijn bij 7 kinderen de Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency, bij 2 kinderen de Peabody Developmental Motor Scales, bij 3 kinderen de Bayley Scales of Infant and Toddler Development en bij 6 kinderen de Beery-Buktenica Developmental Test of Visual Motor Integration gebruikt. Uit deze data blijkt volgens Verheyen et al. (2019) dat 10 van de 13 kinderen een vertraagde fijne motorische ontwikkeling hebben, in vergelijking met de normen van de WHO. Van 5 kinderen is onbekend of er sprake is van een vertraagde fijne motorische ontwikkeling.

Tabel 2*Relatie vorm en ernst van de epilepsie tot het uitvoeren van motorische vaardigheden*

Auteur(s) en jaartal	Vorm epilepsie	Ernst van de epilepsie	Motorisch domein	Resultaten	Regulier/Afwijkend/Vertraagd
Ayaz et al., (2013).	Rolandische epilepsie	Mild	FM ¹	Rolandische epilepsie heeft een negatief effect op de fijne motoriek.	Afwijkend
Beckung & Uvebrant (1993).	Onhandelbare epilepsie	Ernstig	GM ² , FM, HC ³	Onhandelbare epilepsie zorgt voor afwijkende motorische vaardigheden.	Afwijkend
Beckung et al., (1994).	Onhandelbare epilepsie	Ernstig	GM, FM	Epilepsiechirurgie lijkt motorische vaardigheden te verbeteren.	-
Boelen et al., (2005).	Ongecompliceerde cryptogene partiële en idiopathische gegeneraliseerde epilepsie	Mild	GM, FM, HC	De epilepsie lijkt geen effect te hebben op de grove motoriek, fijne motoriek en houdingscoördinatie.	Regulier
Braathen et al., (1997).	Epilepsie	Niet bekend	GM, FM	Carbamazepine tast de fijne motoriek aan.	-
Maalouf et al., (2006)	Goedaardige focale epilepsie	Mild	GM	De motorische vaardigheden van armbewegingen is verminderd.	Afwijkend

¹ FM = Fijne motoriek² GM = Grove motoriek³ HC = Houdingscoördinatie

Reijs et al., (2010).	Cryptogene lokalisatie gerelateerde epilepsie	Zowel mild als ernstig	GM, FM	24/67 kinderen verzwakte motorische vaardigheden, niet duidelijk hoe verzwakt.	24 afwijkend, 43 regulier
Roy et al., (2011).	Enkele status epilepticus	Mild	GM	Geen sprake van motorische ontwikkelingsachterstand.	Regulier
Verheyen et al., (2019).	Syndroom van Dravet	Ernstig	GM	Kinderen met syndroom van Dravet laten een vertraging zien wat betreft zelfstandig kunnen zitten en lopen.	Vertraagd
Verheyen et al., (2020).	Syndroom van Dravet	Ernstig	GM	Leeftijd van het zelfstandig lopen wordt significant geassocieerd met de cognitieve ontwikkeling. Een latere leeftijd van zelfstandig lopen wordt geassocieerd met een lager IQ. Syndroom van Dravet laat vertraging zien bij leeftijd zelfstandig lopen.	Vertraagd

Interne factoren

Interne factoren die een rol kunnen spelen bij de motorische ontwikkeling hebben onder andere betrekking op de genetische aanleg, leeftijd, geslacht en lichaamsgrootte van kinderen (Malina, 2004; Venetsanou & Kambas, 2009). In alle studies zijn verschillende vormen en de ernst van epilepsie onderzocht in relatie tot het motorisch functioneren. In geen enkele studie is echter het verschil tussen jongens en meisjes op motorisch gebied onderzocht. Ook werd leeftijd in geen enkele studie meegenomen als variabele met betrekking tot de motoriek van kinderen met epilepsie.

Een andere interne factor die één onderzoek naar voren kwam, is intelligentie. In het onderzoek van Ayaz et al. (2013) is geanalyseerd of de fijne motorische vaardigheden van kinderen met rolandische epilepsie (RE) een samenhang vertoont met hun cognitieve intelligentie. De intelligentie van de kinderen met RE is bepaald door de Weschler Intelligence Scale for Children-Revised (WISC-R) af te nemen (Wechsler, 1974). De fijne motorische vaardigheden zijn in kaart gebracht door de Purdue Pegboard Test af te nemen, waarbij kinderen binnen een bepaald tijdslimiet zo snel mogelijk pinnen op een bord vast moesten maken. Uit het onderzoek is gebleken dat er geen correlatie is gevonden tussen de intelligentie en de fijne motorische vaardigheden. Door Ayaz et al. (2013) wordt gesteld dat rolandische epilepsie een negatief effect heeft op de fijne motoriek, ongeacht het intelligentieniveau van kinderen. Ook in het onderzoek van Verheyen et al. (2020) is intelligentie meegenomen als variabele in relatie tot de motorische ontwikkeling van kinderen met het syndroom van Dravet. In het onderzoek van Verheyen et al. (2020) is wel een sterke positieve correlatie gevonden met een andere interne factor. Deze correlatie heeft betrekking op de cognitieve en motorische ontwikkeling. Een latere leeftijd van zelfstandig lopen werd geassocieerd met een slechtere cognitieve ontwikkeling bij de kinderen met het syndroom van Dravet (Verheyen et al., 2020).

Externe factoren

Externe factoren, zoals behandelstatus, die een rol kunnen spelen in de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie werden in drie van de tien studies onderzocht. In de studie van Ayaz et al. (2013) is geconstateerd dat externe factoren als de behandelstatus, het type anti-epileptische medicatie geen invloed hebben op de fijne motorische vaardigheden van kinderen met rolandische epilepsie. Beckung et al. (2014) onderzochten wat het effect van epilepsiechirurgie is op de motorische functies van kinderen met epilepsie. Zij vonden verbeteringen in de grove motorische functies bij de kinderen die na de epilepsiechirurgie geen

aanvallen meer hadden. Daarnaast vonden zij verbeteringen wat betreft de fijne motoriek, twee jaar na de epilepsiechirurgie. Ook bij de kinderen waar de aanvallen na de epilepsiechirurgie verminderd waren lieten een verbetering zien in hun motorische functies. Daarnaast stelden zij dat de kinderen die op een jongere leeftijd epilepsiechirurgie zijn ondergaan meer voordeel hadden wat betreft de sensomotorische functies dan kinderen die op een oudere leeftijd epilepsiechirurgie hebben gehad. Een andere externe factor is onderzocht in het onderzoek van Braathen et al. (1997). Met behulp van de Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency en een observatie voor fijn-motorische vaardigheden is onderzocht wat het effect is van de anti-epileptische medicatie carbamazepine op de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie. In de resultaten van dit onderzoek wordt beschreven dat de score op de vier grove motorische functies (loopsnelheid, behendigheid, balans, samenwerking van de handen en kracht) hetzelfde waren tijdens beide meetmomenten. De drie fijne motorische functies (reactiesnelheid, visueel-motorische controle en de snelheid en behendigheid van de bovenste ledematen) waren verbeterd na het stoppen van de behandeling met carbamazepine. Ook de score op van subtest van de coördinatie van het bovenlichaam was verbeterd tijdens het tweede meetmoment: kinderen met epilepsie scoorden beter op dit onderdeel nadat zij gestopt waren met de behandeling met carbamazepine. Dit was echter geen significant verschil. Er zijn geen verschillen gevonden in de scores van kinderen die 1 of 3 jaar behandeld zijn met carbamazepine.

Conclusie en discussie

Het doel van deze literatuurstudie was om te onderzoeken hoe de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie verloopt en welke interne- en externe factoren hierbij mogelijk een rol spelen. Het overkoepelende doel van deze studie was een bijdrage leveren aan de theorievorming over de motorische ontwikkeling van mensen met een ZEVMB, door de motorische ontwikkeling van een verwante doelgroep in kaart te brengen. Totaal zijn tien studies gevonden, waarvan negen studies een gemiddeld risico op bias hebben. Zes van de tien studies hebben echter niet de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie gevolgd, maar alleen de motorische functies van kinderen met epilepsie op één bepaald moment gemeten (Ayaz et al., 2013; Beckung & Uvebrant, 1993; Boelen et al., 2005; Maalouf et al., 2006; Reijs et al., 2010; Roy et al., 2011). Daarnaast hebben twee studies het effect van een behandeling van epilepsie gemeten (Beckung et al., 1994; Braathen et al., 1997). Er zijn twee studies die met behulp van retrospectief dossieronderzoek onderzocht wat het verloop is geweest van de ontwikkeling van bepaalde grof motorische vaardigheden bij kinderen met het syndroom van Dravet (Verheyen et al., 2019; Verheyen et al., 2020). Doordat er maar twee studies zijn gevonden die de grove motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie hebben gevolgd, is het niet mogelijk om goede conclusies te trekken over het verloop van de algehele motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie. Er kan alleen gesteld worden wat de beheersing is van motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie, gemeten op één bepaald moment.

In acht van de tien studies zijn de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie vergeleken met de motorische vaardigheden van kinderen zonder epilepsie. Uit zes van deze studies lijkt de epilepsie een negatieve invloed te hebben op de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie (Ayaz et al., 2013; Beckung & Uvebrant, 1993; Maalouf et al., 2006; Reijs et al., 2010; Verheyen et al., 2019; Verheyen et al., 2020). Per vorm en ernst van de epilepsie verschilt het of de motorische vaardigheden als vertraagd of afwijkend werden gezien. In de resultaten van de geïncludeerde studies wordt gesproken over afwijkende, vertraagde en verminderde motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie, maar komt er echter niet naar voren hoe deze afwijkende, vertraagde en/of verminderde motorische vaardigheden eruitzien. Alleen in de studies waarbij de Movement ABC werd gebruikt als meetinstrument, werden scores lager dan het vijfde percentiel omschreven als “afwijkend”.

Uit de resultaten blijkt dat het per vorm en type ernst van de epilepsie verschilt wat het effect van de epilepsie is op de motorische vaardigheden. Kinderen met een enkele status epilepticus, wat omschreven wordt als een milde vorm van epilepsie, scoren gemiddeld op de motorische test die is afgenomen, waardoor er volgens Roy et al. (2011) niet gesproken kan

worden over een motorische ontwikkelingsachterstand. Ook bij kinderen met ongecompliceerde cryptogene partiële en idiopathische gegeneraliseerde epilepsie, wat ook omschreven wordt als een milde vorm van epilepsie, lijkt de epilepsie geen negatieve invloed te hebben op de motorische vaardigheden. Echter worden uit andere geïnccludeerde studies naar de motorische vaardigheden bij kinderen met andere milde vormen van epilepsie, zoals rolandische epilepsie, goedaardige focale epilepsie en cryptogene lokalisatie gerelateerde epilepsie, wel afwijkende motorische vaardigheden geconstateerd. Zoals eerder beschreven kan uit deze studies niet worden opgemaakt hoe ernstig de afwijking is en op welke motorische gebieden de afwijking zich voor doet. Daarnaast komt uit de resultaten van de geïnccludeerde studies naar voren dat ernstigere vormen van epilepsie, zoals onhandelbare epilepsie, kunnen zorgen voor een afwijkende en/of een vertraagde ontwikkeling. Zo lijkt bij onhandelbare epilepsie sprake te zijn van een afwijkende motorische functie op alle gebieden van motoriek. Bij het syndroom van Dravet lijkt sprake van een vertraagde motorische ontwikkeling. Ondanks dat er bij kinderen met het Syndroom van Dravet sprake lijkt te zijn van een vertraagde grof motorische ontwikkeling op het gebied van lopen, valt hun ontwikkeling nog wel binnen de range van de WHO. Ook lijkt er een relatie te bestaan tussen de ernst van de epilepsie en de kwaliteit van de houdingscoördinatie. Uit de resultaten komt naar voren dat kinderen met ernstigere vormen van epilepsie problemen hebben met hun houdingscoördinatie, maar dat kinderen met een mildere vorm van epilepsie hier geen problemen mee ervaren.

Twee studies hebben de interne factor intelligentie geanalyseerd. De uitkomsten van deze twee onderzoeken spreken elkaar echter tegen. In het onderzoek van Ayaz et al. (2013) is geen samenhang gevonden tussen de motorische vaardigheden en het intelligentieniveau van kinderen met rolandische epilepsie. Daarentegen is in het onderzoek van Verheyen et al. (2020) wel een sterke samenhang gevonden tussen het intelligentieniveau van kinderen met epilepsie en hun (grof) motorische vaardigheden. Zij stelden dat een latere leeftijd van zelfstandig lopen geassocieerd kan worden met een slechtere cognitieve ontwikkeling bij de kinderen met het syndroom van Dravet (Verheyen et al., 2020). Er zijn geen andere interne factoren in de geïnccludeerde studies geanalyseerd, wat maakt dat er geen uitspraken gedaan kunnen worden over de relatie tussen andere interne factoren en de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie.

Een externe factor die vanuit de geïnccludeerde studies een rol lijkt te spelen bij de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie is de behandeling van de epilepsie. Zo lijkt epilepsiechirurgie de grove- en fijne motorische vaardigheden te verbeteren, terwijl de behandeling met de anti-epileptische medicatie carbamazepine de fijne motorische

vaardigheden lijkt te verslechteren (Beckung et al., 1994; Braathen et al., 1997). Door ander onderzoek wordt echter gesteld dat de behandelstatus, bij rolandische epilepsie, geen effect lijkt te hebben op de motorische vaardigheden (Ayaz et al., 2013). In hoeverre de behandelstatus van kinderen met epilepsie invloed heeft op de motorische vaardigheden, lijkt te verschillen per vorm van epilepsie. Er zijn geen resultaten beschikbaar over de invloed van andere externe factoren in relatie tot de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie.

Methodologische reflectie

Dit onderzoek betrof het in kaart brengen van de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie en meespelende interne- en externe factoren. Hiervoor is een systematische literatuurstudie uitgevoerd. Dit was een passende methode, want op deze manier konden alle studies die betrekking hadden op dit onderwerp overzichtelijk weergegeven, vergeleken en geanalyseerd worden. Het selecteren van de artikelen is op een systematische wijze uitgevoerd, waarbij de betrouwbaarheid van deze selecties voldoende werd geacht. Het bepalen van de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid is echter in een kort tijdsbestek uitgevoerd, namelijk binnen slechts één week. Hierdoor is het risico op bias groter dan wanneer er meer tijd tussen de twee selecties had gezeten. Meer tijd tussen beide selecties was niet haalbaar, gezien de beperkte beschikbare tijd voor dit onderzoek.

Een exclusiecriteria van dit onderzoek was dat alle artikelen die in een andere taal dan het Engels waren geschreven, niet mee werden genomen in dit onderzoek. Het gevolg hiervan is dat mogelijk goed bruikbare artikelen voor dit onderzoek gemist zijn. Dit wordt gezien als een limitatie van de methode van dit onderzoek, omdat de informatie over de motorische ontwikkeling en meespelende interne- en externe factoren van kinderen met epilepsie hierdoor beperkt werd en dus geen compleet beeld gevormd kan worden. Tijdens de selectie van de artikelen voor dit onderzoek is onder andere een bruikbaar artikel gevonden die in het Noors was geschreven, maar vanwege het opgestelde exclusiecriteria mocht dit artikel niet worden geïnccludeerd.

Uiteindelijk zijn voor dit onderzoek tien artikelen geïnccludeerd. Van de selectieprocedure van de artikelen is de betrouwbaarheid bepaald. De betrouwbaarheidsscores waren voldoende, waardoor gesteld kan worden dat de betrouwbaarheid van de literatuurselectie gewaarborgd is. De conclusie van dit onderzoek is gebaseerd op een zeer gering aantal studies. Negen studies hadden een gemiddeld risico op bias (Ayaz et al., 2013; Beckung & Uvebrant, 1993; Beckung et al., 1994; Braathen et al., 1997; Maalouf et al., 2006;

Reijs et al., 2010; Roy et al., 2011; Verheyen et al., 2019; Verheyen et al., 2020), en één studie had een laag risico op bias (Boelen et al., 2005). De studies zijn daarmee van voldoende kwaliteit om de resultaten te interpreteren. Echter kan ter discussie worden gesteld of er door het geringe aantal geïncludeerde studies een conclusie getrokken kan worden die voldoende betrouwbaar is.

Theoretische reflectie

Het doel van dit onderzoek was een bijdrage leveren aan de theorievorming over de motorische ontwikkeling van mensen met een ZEVMB door middel van de motorische ontwikkeling van een verwante doelgroep in kaart te brengen. Dit onderzoek betrof de verwante doelgroep epilepsie. Uit dit onderzoek blijkt dat de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie af lijkt te hangen van de vorm epilepsie. In onderzoek van Neville (1991) wordt beschreven dat epilepsie op zichzelf al een verhoogd risico op problemen met zich meebrengt wat betreft de motorische vaardigheden. Uit dit onderzoek blijkt echter dat dit verschilt per vorm en ernst van de epilepsie. Kinderen met milde epilepsie scoren namelijk in twee onderzoeken hetzelfde op de gebruikte motorische testen als kinderen zonder epilepsie in de geïncludeerde studies van dit onderzoek. Daarentegen scoren kinderen met milde epilepsie in twee andere onderzoeken lager op de gebruikte motorische testen dan kinderen zonder epilepsie. Ook ernstige epilepsie heeft een negatief effect op de motorische vaardigheden van kinderen. Zo is uit dit onderzoek gebleken dat bij het syndroom van Dravet, wat een ernstig epilepsiesyndroom is, sprake is van een vertraagde motorische ontwikkeling die kan ontstaan voor het eerste levensjaar. In een review van Bertuccelli et al. (2021) wordt bevestigd dat er bij het syndroom van Dravet sprake is van een vertraagde motorische ontwikkeling, maar dat deze vertraging op het gebied van de motorische ontwikkeling pas na het tweede levensjaar zichtbaar wordt.

De geïncludeerde studies hadden, op één studie na, betrekking op een vorm van epilepsie zonder verdere bijkomende neurologische problematiek. Acht van de tien studies lieten zien dat vrijwel alle vormen van epilepsie op zichzelf staand al een negatief effect hebben op de motorische vaardigheden. Wanneer gekeken wordt naar de theorievorming over de motorische ontwikkeling van mensen met een ZEVMB, moet onthouden worden dat een ZEVMB op zichzelf staand ook veelal gepaard gaat met motorische problemen (Nakken & Vlaskamp, 2007). Wanneer een persoon naast een ZEVMB ook epilepsie heeft, zou gesteld kunnen worden dat de motorische problematiek van mensen met een ZEVMB ernstiger wordt. Dit blijkt ook uit onderzoek van Beckung en Uvebrant (1997). Zij vonden dat wanneer kinderen

zowel epilepsie als een ernstige verstandelijke beperking hadden, er geen sprake is van een normale motorische ontwikkeling. Wanneer deze combinatie optreedt, zijn er problemen op alle gebieden van motoriek. Dit houdt in dat geen van deze kinderen beschikte over een normale houdingscoördinatie, normale grove motorische vaardigheden en normale fijne motorische vaardigheden (Beckung et al., 1997).

In geen enkele geïncludeerde studie zijn externe factoren, zoals de situatie waarin een kind opgroeit of de hoeveelheid motorische stimulering, aan bod gekomen (Venetsanou & Kambas, 2009). Dit maakt dat niet gezegd kan worden in welke mate de externe factoren, die normaal gesproken een rol spelen bij de motorische ontwikkeling van kinderen, van invloed zijn op de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie. Daarnaast is in onderzoek naar meespelende externe factoren in de ontwikkeling van kinderen met ZEVMB gevonden dat er met name een gebrek is aan de informatie over hoe ouders en familie een rol spelen in de ontwikkeling van deze kinderen (Van Keer & Maes, 2018).

Kinderen en volwassenen met een ZEVMB ervaren vrijwel altijd een aantal bijkomende medische problemen en/of neurologische ontwikkelingsproblemen (Van Timmeren et al., 2016). Voorbeelden van bijkomende medische problemen of neurologische ontwikkelingsproblemen zijn zintuigelijke stoornissen, autisme en epilepsie (Arvio & Sillanpää, 2003; Cervantes & Mataon, 2015; Gustavson et al., (2005). Naast dit onderzoek over de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie, zijn er door andere studenten van de Rijksuniversiteit Groningen andere literatuurstudies uitgevoerd over de motorische ontwikkeling van andere verwante doelgroepen van personen met een ZEVMB. Deze onderzoeken hebben betrekking op de motorische ontwikkeling van kinderen met Autisme Spectrum Stoornis (ASS), kinderen met een auditieve beperking en kinderen met een visuele beperking. Uit het literatuuronderzoek naar het verloop van de motorische ontwikkeling van kinderen met ASS, is gebleken dat deze kinderen motorisch minder goed functioneren dan kinderen zonder ASS. De fijne motoriek lijkt met name vertraagd, maar de grove motoriek loopt bij een groot deel van de kinderen met ASS gelijk aan de kinderen zonder ASS. Uit het literatuuronderzoek naar de motorische ontwikkeling van kinderen met een auditieve beperking komt naar voren dat met name de balans en de grove motoriek vertraagd lijken. Naar de fijne motoriek is bij deze doelgroep het minst onderzoek naar gedaan. Tevens lijken interne factoren als vestibulaire disfunctie, een laag geboortegewicht en prematuriteit een negatieve invloed te hebben op de motorische ontwikkeling van kinderen met een auditieve beperking. Tot slot blijkt uit het literatuuronderzoek naar de motorische ontwikkeling van kinderen met een visuele beperking dat kinderen met een visuele beperking een minder goede motorische ontwikkeling

te hebben dan kinderen zonder een visuele beperking. Veel blinde kinderen slaan de fase van kruipen over en gaan gelijk staan. De grove motoriek van kinderen met een visuele beperking lijkt minder goed ontwikkeld dan de fijne motoriek. Vooral balans lijkt een moeilijk onderdeel voor kinderen met een visuele beperking. Er is bij kinderen met een visuele beperking sprake van een vertraagde ontwikkeling, maar geen compleet afwijkende motorische ontwikkeling ten opzichte van kinderen zonder visuele beperking. Daarnaast speelt de mate van de visuele beperking ook een rol. Kinderen met een mindere mate van blindheid presteren beter op het gebied van motoriek dan kinderen met een grotere mate van blindheid. Bij de meeste mensen met een ZEVMB gaan de ernstige verstandelijke meervoudige beperkingen onder andere gepaard met zintuigelijke beperkingen, zoals visuele en auditieve problemen (Nakken & Vlaskamp, 2007). Alle bovengenoemde gezondheidsproblemen komen voor in combinatie met ZEVMB en lijken een negatieve invloed te hebben op de motorische ontwikkeling van kinderen met een ZEVMB. Er lijkt bij deze doelgroepen met name sprake van een vertraagde motorische ontwikkeling. Uit deze gegevens kan verwacht worden dat wanneer deze problemen in combinatie met een ZEVMB optreden, mensen met een ZEVMB zich hoogstwaarschijnlijk vertraagd zullen ontwikkelen op het gebied van motoriek.

Aanbevelingen voor vervolgonderzoek

Vanuit de beperkingen van dit onderzoek kunnen een aantal aanbevelingen worden gedaan voor wetenschappelijk vervolgonderzoek. Allereerst zijn er in de geïncludeerde studies van dit onderzoek verschillende vormen van epilepsie bestudeerd. Echter was er een gering aantal studies beschikbaar over de relatie tussen epilepsie en de motorische ontwikkeling. Daarnaast waren er geen studies beschikbaar over de externe factoren die een mogelijke rol spelen bij de motorische ontwikkeling van epilepsie. Het is raadzaam om longitudinale studies uit te voeren, waarin de relaties tussen epilepsie en de motorische ontwikkeling worden onderzocht. Daarbij moet duidelijk onderscheid worden gemaakt in het type en de ernst van de epilepsie. Bij het onderzoeken van de relatie tussen bepaalde vormen van epilepsie en de motorische ontwikkeling is het van belang om gebruik te maken van één motorische test om de verschillende domeinen van de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie in kaart te brengen. Door het gebruiken van dezelfde test, kan een completer beeld worden gevormd van de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie. Daarnaast kunnen de resultaten die voortvloeien uit de testen die worden afgenomen gemakkelijker vergeleken worden, ook als het gaat over kinderen met verschillende vormen van epilepsie. Tevens is het bij het doen van

vervolgonderzoek van belang om rekening te houden met het type behandeling in kaart te brengen, omdat de behandeling ook invloed lijkt te hebben op de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie (Beckung et al, 1994; Braathen et al., 1997). Tot slot wordt aangeraden om de meespelende externe factoren te onderzoeken. In de geanalyseerde studies zijn externe factoren als de mate van motorische stimulatie niet onderzocht. Het is niet duidelijk wat de invloed is van externe factoren die een rol spelen bij de motorische ontwikkeling bij kinderen met epilepsie, laat staan voor kinderen met een combinatie van ZEVMB en epilepsie. Het onderzoeken van externe factoren, zoals de mate van stimulatie van bewegingen, zou een grote bijdrage kunnen leveren aan het werkveld in de praktijk, zodat zowel preventie als passende interventies ingezet kunnen worden in het begeleiden van de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie.

Wanneer de motorische ontwikkeling van kinderen met epilepsie in combinatie met wordt onderzocht, moeten andere meetinstrumenten gebruikt worden dan in onderzoeken naar de motorische ontwikkeling van kinderen zonder beperkingen. Ten eerste wordt aangeraden om gebruik te maken van observaties wanneer de motorische ontwikkeling van kinderen met een ZEVMB wordt onderzocht. Eén van de redenen hiervoor is dat de testen die veelal worden gebruikt om de motorische ontwikkeling te meten niet aangepast zijn op kinderen met een ZEVMB (Maes et al., 2021). Vaak zijn voor testen verbale instructies nodig en mensen met een ZEVMB zijn vrijwel niet in staat om deze instructies op te volgen, omdat zij de instructies niet zullen begrijpen. Bij het doen van observaties is geen instructie nodig. Daarnaast stelt het doen van observaties onderzoekers in staat om zicht te krijgen op het feitelijke gedrag van mensen met een ZEVMB (Maes et al., 2021). Wat ook van belang kan zijn in het vergaren van meer kennis over de motorische ontwikkeling van kinderen met een ZEVMB, is om hun ouders te interviewen. Ouders zijn experts wat betreft de communicatie en het welbevinden van hun kind (Kruithof et al., 2020). Zij kunnen veel informatie geven over hoe hun kinderen zich in de eerste levensjaren hebben ontwikkeld, wat kan zorgen voor meer kennis over de ontwikkeling van deze doelgroep. Daarnaast kunnen ouders vertellen over wat hun rol is geweest in onder andere de motorische ontwikkeling van kinderen met een ZEVMB, omdat hier nu weinig over bekend is (Van Keer & Maes, 2018). Op deze manier kan ook kennis vergaard worden over in hoeverre externe factoren, zoals stimulatie vanuit ouders, een rol spelen bij de motorische ontwikkeling van kinderen met een ZEVMB.

Aanbevelingen voor de praktijk

Naast aanbevelingen te geven voor vervolgonderzoek, is het belangrijk om aanbevelingen te formuleren voor de praktijk. Een eerste aanbeveling is dat vanuit de orthopedagoog naar de betrokkenen van kinderen met ZEVMB gecommuniceerd wordt dat zij, ondanks dat ze een afwijkende en/of vertraagde motorische ontwikkeling hebben, wel in staat zijn om kleine motorische vaardigheden te verwerven. Daarbij is het van belang om te kijken naar, wanneer een persoon naast een ZEVMB ook epilepsie heeft, welke vorm van epilepsie de persoon heeft en wat de ernst van de epilepsie is. Dit is belangrijk, omdat uit dit onderzoek naar voren is gekomen dat de vorm en de ernst van de epilepsie invloed lijken te hebben op de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie, dus mogelijk ook op de motorische vaardigheden van kinderen met epilepsie in combinatie met ZEVMB. Daarnaast is het raadzaam om te kijken welke type anti-epileptische medicatie een kind met ZEVMB gebruikt. We weten namelijk nu dat carbamazepine een negatief effect kan hebben op de motorische vaardigheden van kinderen. Door deze gegevens te verzamelen kan er meer kennis ontstaan over het verloop van de motorische ontwikkeling, waardoor er meer theorievorming plaats kan vinden. Bij het inzetten van interventies moet rekening worden gehouden met de vorm en de ernst van de epilepsie van een persoon met ZEVMB. Bijvoorbeeld wanneer een kind naast een ZEVMB het syndroom van Dravet heeft, moet meegenomen worden dat hij zich mogelijk vertraagd ontwikkelt op het gebied van motoriek en dat er daarom andere doelen gesteld zullen moeten worden dan bijvoorbeeld bij kinderen met ZEVMB en rolandische epilepsie.

Nu bekend is dat de meeste vormen van epilepsie een negatieve invloed hebben op de motorische vaardigheden, wijst dit mogelijk uit dat de combinatie van epilepsie en ZEVMB mogelijk een grote negatieve invloed heeft op de motorische vaardigheden van deze kinderen. Het is van belang dat er meer vervolgonderzoek gedaan wordt en er in de praktijk rekening gehouden wordt met zowel de mogelijkheden als de beperkingen van kinderen met een ZEVMB en bijkomende problematiek. Door steeds meer kennis te vergaren, kan deze doelgroep op een effectieve wijze worden ondersteund, waarmee hun kwaliteit van leven uiteindelijk wordt vergroot.

Literatuurlijst

- Appleton, R., & Marson, A.G. (2009). *Epilepsy: the facts*. Oxford University Press.
- Arvio, M., & Sillanpää, M. (2003). Prevalence, aetiology and comorbidity of severe and profound intellectual disability in Finland. *Journal of Intellectual Disability Research*, 47, 108–112. <https://doi.org/10.1046/j.1365-2788.2003.00447.x>
- Ayaz, M., Kara, B., Soylu, N., & Ayaz, A. B. (2013). Fine motor skills in children with Rolandic epilepsy. *Epilepsy & behavior : E&B*, 29(2), 322–325. <https://doi.org/10.1016/j.yebeh.2013.07.033>
- Beckung, E., Steffenburg, U., & Uvebrant, P. (1997). Motor and sensory dysfunctions in children with mental retardation and epilepsy. *Seizure: European Journal of Epilepsy*, 6(1), 43–50. [https://doi.org/10.1016/S1059-1311\(97\)80052-0](https://doi.org/10.1016/S1059-1311(97)80052-0)
- Beckung, E., & Uvebrant, P. (1993). Motor and sensory impairments in children with intractable epilepsy. *Epilepsia*, 34(5), 924-929. <https://doi.org/10.1111/j.1528-1157.1993.tb02113.x>
- Beckung, E., Uvebrant, P., Hedström, A., & Rydenhag, B. (1994). The effects of epilepsy surgery on the sensorimotor function of children. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 36(10), 893-901. <https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.1994.tb11780.x>
- Bertuccelli, M., Verheyen, K., Hallemans, A., Sander, J. W., Ragona, F., Bisiacchi, P., Masiero, S., & Del Felice, A. (2021). Deconstructing dravet syndrome neurocognitive development: a scoping review. *Epilepsia*, 62(4), 874–887. <https://doi.org/10.1111/epi.16844>
- Best, J. R. (2010). Effects of physical activity on children's executive function: contributions of experimental research on aerobic exercise. *Developmental Review*, 30(4), 331–351. <https://doi.org/10.1016/j.dr.2010.08.001>
- Bhise, V. V., Burack, G. D., & Mandelbaum, D. E. (2010). Baseline cognition, behavior, and motor skills in children with new-onset, idiopathic epilepsy. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 52(1), 22–6. <https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2009.03404.x>
- Boelen, S., Nieuwenhuis, S., Steenbeek, L., Veldwijk, H., van de Ven-Verest, M., Tan, I. Y., & Aldenkamp, A. P. (2005). Effect of epilepsy on psychomotor function in children with uncomplicated epilepsy. *Developmental medicine and child neurology*, 47(8), 546–550. <https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2005.tb01189.x>
- Boonzaaijer, M., Suir, I., Mollema, J., Nuysink, J., Volman, M., & Jongmans, M. (2020). Factors associated with gross motor development from birth to independent walking:

- A systematic review of longitudinal research. *Child: care, health and development*, 47(4), 525-561. <https://doi.org/10.1111/cch.12830>
- Bossink, L.W.M., Frans, N., & van der Putten, A.A.J. (2016). Mate en wijze van motorische activering in de dagelijkse praktijk: Een onderzoek bij personen met (zeer) ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen. *NTZ Nederlands Tijdschrift voor de Zorg aan mensen met verstandelijke beperkingen*, 2016(1), 3-16.
- Braathen, G., Bahr, L., & Theorell, K. (1997). Motor impairments in children with epilepsy treated with carbamazepine. *Acta Paediatrica*, 86(4), 372–376. <https://doi.org/10.1111/j.16512227.1997.tb09025.x>
- Bruininks, R. H. (1978). Bruininks-Oseretsky test of motor proficiency. Pearson
- Camfield, P., & Camfield, C. (2002). Epileptic syndromes in childhood: clinical features, outcomes, and treatment. *Epilepsia*, 43, 27–32. <https://doi.org/10.1046/j.1528-1157.43.s.3.3.x>
- Campbell, S. K. (1989). Chapter 1: Measurement in Developmental Therapy: Past, Present, Future. *Physical & Occupational Therapy in Pediatrics*, 9(1), 1-13. https://doi.org/10.1080/J006v09n01_01
- Cervantes, P. E., & Matson, J. L. (2015). Comorbid Symptomology in Adults with Autism Spectrum Disorder and Intellectual Disability. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(12), 3961–3970. <https://doi.org/10.1007/s10803-015-2553-z>
- Conant, K. D., Morgan, A. K., Muzykewicz, D., Clark, D. C., & Thiele, E. A. (2008). A karate program for improving self-concept and quality of life in childhood epilepsy: Results of a pilot study. *Epilepsy & behavior*, 12(1), 61-65. <https://doi.org/10.1016/j.yebeh.2007.08.011>
- Daoud, H., & Bayoumi, M. A. (2019). Efficient epileptic seizure prediction based on deep learning. *IEEE transactions on biomedical circuits and systems*, 13(5), 804-813. <https://doi.org/10.1109/TBCAS.2019.2929053>
- De Bil, M., & de Bil, P. (2007). *Praktijkgerichte ontwikkelingspsychologie. Van wieg tot hangplek: de ontwikkeling van 0- tot 18-jarigen*. Uitgeverij Boom/Nelissen.
- Dravet, C., Bureau, M., Bernardina, B. D., & Guerrini, R. (2011). Severe myoclonic epilepsy in infancy (dravet syndrome) 30 years later. *Epilepsia*, 52, 1–2. <https://doi.org/10.1111/j.1528-1167.2011.02993.x>
- Drenth, P.J.D., & Sijtsma, K. (2006). *Testtheorie: een inleiding in de theorie van de psychologische test en zijn toepassingen*. Bohn Stafleu van Loghum.

- Edwards, S. L., & Sarwark, J. F. (2005). Infant and child motor development. *Clinical Orthopaedics and Related Research*, 434, 33-39. <https://doi.org/10.1097/00003086200505000-00006>
- Gabbard, C. (2018). *Lifelong motor development* (Seventh ed.). Philadelphia: Wolters Kluwer Health.
- Glover, S., Burns, J., & Stanley, B. (1994). Goal attainment scaling as a method of monitoring the progress of people with severe learning disabilities. *British Journal of Learning Disabilities*, 22(4), 148–150. <https://doi.org/10.1111/j.1468-3156.1994.tb00139.x>
- Goodway, J. D., Ozmun, J. C., & Gallahue, D. L. (2019). *Understanding motor development: Infants, children, adolescents, adults*. Jones & Bartlett Learning.
- Griffiths, R. (1976). *The abilities of babies*. University of London Press.
- Gustavson, K. H., Umb-Carlsson, O., & Sonnander, K. (2005). A follow-up study of mortality, health conditions and associated disabilities of people with intellectual disabilities in a Swedish county. *Journal of Intellectual Disability Research*, 49(12), 905–914. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2788.2005.00728.x>
- Harris, S. R., Thompson, M., & McGrew, L. (1983). Motor assessment tools: their concurrent validity in evaluating children with multiple handicaps. *Arch Phys Med Rehabil*, 64, 468-70.
- Haywood, K. M., & Getchell, N. (2021). *Life Span Motor Development* (7de editie). Human Kinetics.
- Henderson, S. E. (1987). The assessment of "clumsy" children: old and new approaches. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, and Allied Disciplines*, 28(4), 511–27.
- Hendriks, M., van Bronswijk, K., Aldenkamp, B., & van der Vlugt, H. (1999). Epilepsie: een aanval op het geheugen? *Neuropraxis*, 3(6), 122-126. <https://doi.org/10.1007/BF03070965>
- Hindmarch, I. (2014). Psychomotor Performance in Humans. In I.P. Stolerman & L.H. Price (Eds.) *Encyclopedia of Psychopharmacology*. Berlijn, Duitsland: Springer. <https://doi.org/10.1007/978-3-642-27772-6>
- Holburn, S., Jacobson, J. W., Schwartz, A. A., Flory, M. J., & Vietze, P. M. (2004). The willowbrook futures project: a longitudinal analysis of person-centered planning. *American Journal of Mental Retardation : Ajmr*, 109(1), 63–76. [https://doi.org/10.1352/0895-8017\(2004\)109<63:TWFPAL>2.0.CO;2](https://doi.org/10.1352/0895-8017(2004)109<63:TWFPAL>2.0.CO;2)

- Houwen, S., Visscher, C., Lemmink, K. A. P. M., & Hartman, E. (2009). Motor skill performance of children and adolescents with visual impairments: a review. *Exceptional Children, 75*(4), 464–492. <https://doi.org/10.1177/001440290907500405>
- Houwen, S., Visser, L., van der Putten, A., & Vlaskamp, C. (2016). The interrelationships between motor, cognitive, and language development in children with and without intellectual and developmental disabilities. *Research in Developmental Disabilities, 53*, 19–31. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2016.01.012>
- Hwang, A. W., Liao, H. F., Granlund, M., Simeonsson, R. J., Kang, L. J., & Pan, Y. L. (2013). Linkage of ICF-CY codes with environmental factors in studies of developmental outcomes of infants and toddlers with or at risk for motor delays. *Disability and Rehabilitation, 36*(2), 89–104. <https://doi.org/10.3109/09638288.2013.777805>
- Jones, M. C., Walley, R. M., Leech, A., Paterson, M., Common, S., & Metcalf, C. (2006). Using goal attainment scaling to evaluate a needs-led exercise programme for people with severe and profound intellectual disabilities. *Journal of Intellectual Disabilities : Joid, 10*(4), 317–35. <https://doi.org/10.1177/1744629506070051>
- Kruithof, K., Willems, D., van Etten-Jamaludin, F., & Olsman, E. (2020). Parents' knowledge of their child with profound intellectual and multiple disabilities: An interpretative synthesis. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, <https://doi.org/10.1111/jar.12740>
- Law, M., Stewart, D., Pollock, N., Letts, L., Bosch, J., & Westmorland, M. (1998). *Review Form – Quantitative Studies*.
- Laxer, K. D., Trinkka, E., Hirsch, L. J., Cendes, F., Langfitt, J., Delanty, N., Resnick, T., & Benbadis, S. R. (2014). The consequences of refractory epilepsy and its treatment. *Epilepsy & Behavior, 37*, 59–70. <https://doi.org/10.1016/j.yebeh.2014.05.031>
- Libertus, K., & Hauf, P. (2017). Motor skills and their foundational role for perceptual, social, and cognitive development. *Frontiers in psychology, 8*, 301. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2017.00301>
- Maalouf, M., Takahashi, C. D., Reinkensmeyer, D. J., Cooper, D. M., & Rho, J. M. (2006). Impaired Motor Control in Patients With Benign Focal Epilepsy of Childhood. *Journal of Child Neurology, 21*(2), 157–160. <https://doi.org/10.1177/08830738060210020601>
- Maes, B., Nijs, S., Vandesande, S., Van keer, I., Arthur-Kelly, M., Dind, J., Goldbart, J., Petitpierre, G., & Van der Putten, A. (2021). Looking back, looking forward: methodological challenges and future directions in research on persons with profound

- intellectual and multiple disabilities. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 34(1), 250–262. <https://doi.org/10.1111/jar.12803>
- Maes, B., & Vlaskamp, C. (2020). *Ondersteuning van mensen met ernstige meervoudige beperkingen* (1ste ed.). Acco.
- Malina, R. M. (2004). Motor development during infancy and early childhood: Overview and suggested directions for research. *International journal of sport and health science*, 2, 50-66. <https://doi.org/10.5432/ijshs.2.50>
- Matheis, M., & Estabillo, J. A. (2018). Assessment of fine and gross motor skills in children. In *Handbook of Childhood Psychopathology and Developmental Disabilities Assessment* (pp. 467-484). Springer. https://doi.org/10.1007/978-3-319-93542-3_25
- McLaren, C., & Rodger, S. (2003). Goal attainment scaling: clinical implications for paediatric occupational therapy practice. *Australian Occupational Therapy Journal*, 50(4), 216–224. <https://doi-org.proxy-ub.rug.nl/10.1046/j.1440-1630.2003.00379.x>
- McMahan, A., & Maricle, D. E. (2020). Epilepsy: What School Psychologists Should Know. *Communique*, 49(2), 10-12.
- Moffat, C., Dorris, L., Connor, L., & Espie, C. A. (2009). The impact of childhood epilepsy on quality of life: a qualitative investigation using focus group methods to obtain children's perspectives on living with epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 14(1), 179–189. <https://doi.org/10.1016/j.yebeh.2008.09.025>
- Nakken, H. & Vlaskamp, C. (2007). A need for taxonomy for profound intellectual and multiple disabilities. *Journal of Policy and Practice in Intellectual Disabilities*, 4, 83-87. <https://doi.org/10.1111/j.1741-1130.2007.00104.x>
- Neville, B. G. (1999). Reversible disability associated with epilepsy. *Brain & Development*, 21(2), 82–5. [https://doi.org/10.1016/S0387-7604\(98\)00097-7](https://doi.org/10.1016/S0387-7604(98)00097-7)
- Pereira, K. R. G., Valentini, N. C., & Saccani, R. (2016). Brazilian infant motor and cognitive development: longitudinal influence of risk factors. *Pediatrics International*, 58(12), 1297–1306. <https://doi.org/10.1111/ped.13021>
- Poppes, P., Van der Putten, A. A. J., Ten Brug, A., & Vlaskamp, C. (2016). Staff attributions of the causes of challenging behaviour in children and adults with profound intellectual and multiple disabilities. *Research in developmental disabilities*, 48, 95-102. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2015.10.014>
- Poppes, P., Van der Putten, A.A.J., & Vlaskamp, C. (2011). Planmatig werken. In: B. Maes, C. Vlaskamp & A. Penne. *Ondersteuning van mensen met ernstige meervoudige beperkingen. Handvatten voor een kwaliteitsvol leven* (pp. 95-110). Uitgeverij Acco.

- Reijs, R. P., de la Parra, N. M., van Mil, S. G. M., van Hall, M. H. J. A., Arends, J. B. A. M., Weber, J. W., Renier, W. O., & Aldenkamp, A. P. (2010). Motor function in children with cryptogenic localization related epilepsy. *Seizure: European Journal of Epilepsy*, 19(8), 467–469. <https://doi.org/10.1016/j.seizure.2010.06.003>
- Rodrigues, L. P., Luz, C., Cordovil, R., Mendes, R., Alexandre, R., & Lopes, V. P. (2021). Siblings' Influence on the Motor Competence of Preschoolers. *Children (Basel, Switzerland)*, 8(3), 204. <https://doi.org/10.3390/children8030204>
- Roy, H., Lippé, S., Lussier, F., Sauerwein, H. C., Lortie, A., Lacroix, J., & Lassonde, M. (2011). Developmental outcome after a single episode of status epilepticus. *Epilepsy & behavior: E&B*, 21(4), 430–436. <https://doi.org/10.1016/j.yebeh.2011.05.009>
- Sices, L. (2007). Use of Developmental Milestones in Pediatric Residency Training and Practice: Time to Rethink the Meaning of the Mean. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 28(1), 47–52. <https://doi.org/10.1097/dbp.0b013e31803084c6>
- Smits-Engelsman, B.C.M. (1998). *Movement ABC; Nederlandse Handleiding*. Swets en Zeitlinger.
- Sollerman, C. (1980). *The use of eight main hand grips in activities of daily living*. Orthopedic Surgery, University Göteborg
- Stanley, B. (1984). Evaluation of treatment goals: the use of goal attainment scaling. *Journal of Advanced Nursing*, 9(4), 351–6. <https://doi-org.proxy-ub.rug.nl/10.1111/j.1365-2648.1984.tb00383.x>
- Stott, D. H., Moyes, F. A., & Henderson, S. E. (1984). *Test of motor impairment: manual*. Brookes Publusing
- Tatum, W. O., Kaplan, P. W., & Jallon, P. (2009). *Epilepsy a to z : a concise encyclopedia* (2de editie). Demos Medical.
- Utle, A. (2019). *Motor control, learning and development : instant notes*. Routledge. Geraadpleegd op 25 juli 2022, van <https://www-taylorfrancis-com.proxy-ub.rug.nl/books/mono/10.4324/9781315102481/motor-control-learning-development-andrea-utley>
- Valadi, S., & Gabbard, C. (2020). The effect of affordances in the home environment on children's fine-and gross motor skills. *Early Child Development and Care*, 190(8), 1225-1232. <https://doi.org/10.1080/03004430.2018.1526791>
- Van der Fels, I. M., te Wierike, S. C., Hartman, E., Elferink-Gemser, M. T., Smith, J., & Visscher, C. (2015). The relationship between motor skills and cognitive skills in 4–16

- year old typically developing children: A systematic review. *Journal of Science and Medicine in Sport*, 18, 697–703. <https://doi.org/10.1016/j.jsams.2014.09.007>
- Van der Putten, A.A.J., Vlaskamp, C., Reynders, K., & Nakken, H. (2005). Children with profound intellectual and multiple disabilities: the effects of functional movement activities. *Clinical Rehabilitation*, 19(6), 613–620. <https://doi.org/10.1191/0269215505cr899oa>
- Van der Putten, A.A.J., Bossink, L.W.M., Frans, N., Houwen, S., & Vlaskamp, C. (2016). Motor activation in people with profound intellectual and multiple disabilities in daily practice. *Journal of Intellectual & Developmental Disability*, 42(1), 1-11. <https://doi.org/10.3109/13668250.2016.1181259>
- Van Keer, I., & Maes, B. (2018). Contextual factors influencing the developmental characteristics of young children with severe to profound intellectual disability: a critical review. *Journal of Intellectual & Developmental Disability*, 43(2), 183–201. <https://doi.org/10.3109/13668250.2016.1252458>
- Van Timmeren, E. A., Van der Schans, C. P., Van der Putten, A. A. J., Krijnen, W. P., Steenbergen, H. A., Van Schroyen Lantman-de Valk, H. M. J., & Waninge, A. (2016). Physical health issues in adults with severe or profound intellectual and motor disabilities: a systematic review of cross-sectional studies. *Journal of Intellectual Disability Research*, 61(1). <https://doi.org/10.1111/jir.12296>
- Venetsanou, F., & Kambas, A. (2009). Environmental factors affecting preschoolers' motor development. *Early childhood education journal*, 37(4), 319-327. <https://doi.org/10.1007/s10643-009-0350-z>
- Verheyen, K., Verbecque, E., Ceulemans, B., Schoonjans, A. S., Van De Walle, P., & Hallemans, A. (2019). Motor development in children with Dravet syndrome. *Developmental medicine and child neurology*, 61(8), 950–956. <https://doi.org/10.1111/dmcn.14147>
- Verheyen, K., Wyers, L., Del Felice, A., Schoonjans, A. S., Ceulemans, B., Van de Walle, P., & Hallemans, A. (2020). Independent walking and cognitive development in preschool children with Dravet syndrome. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 63(4), 472-479. <https://doi.org/10.1111/dmcn.14738>
- Visser, L., Vlaskamp, C., Emde, C., Ruiters, S. A., & Timmerman, M. E. (2017). Difference or delay? A comparison of Bayley-III Cognition item scores of young children with and without developmental disabilities. *Research in developmental disabilities*, 71, 109–119. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2017.09.022>

- Vlaskamp, C., & Van der Putten, A. A. J. (2009). Focus on interaction: the use of an individualized support program for persons with profound intellectual and multiple disabilities. *Research in Developmental Disabilities*, 30(5), 873–883. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2008.12.005>
- Vugteveen, J., Putten, A. van der, & Vlaskamp, C. (2014). Inventarisatieonderzoek personen met ernstige meervoudige beperkingen: prevalentie en karakteristieken. Stichting Kinderstudies.
- Wechsler, D. (1974). Manual for the Wechsler intelligence scale for children. Psychological Corporation.
- Wheless, J. (2012). *Epilepsy in children and adolescents*. Chichester: West Sussex
- World Health Organization. (2022). *Epilepsy*. Geraadpleegd op 23 april 2022, van <https://www.who.int/news-room/fact-sheets/detail/epilepsy>
- WHO Multicentre Growth Reference Study Group. (2006). WHO Motor Development Study: Windows of achievement for six gross motor development milestones. *Acta Paediatrica*, 450, 86-95. <https://doi.org/10.1111/j.1651-2227.2006.tb02379.x>

Bijlagen

Bijlage A – Zoekstring

motor AND (development* or skill* or function* or abilit* or milestone*) AND (epilepsy or epilepsy in children or children with epilepsy or children with seizures).”

Bijlage B – Critical Review Form – Quantitative Studies

Questions:

- 1=Was the purpose stated clear?
- 2=Was relevant background literature reviewed?
- 3=Was the design appropriate for the study question?
- 4=Were there any biases present?
- 5=Was the sample described in detail?
- 6 = Was the sample size justified?
- 7 = Was informed consent obtained? (if not described, assume no);
- 8 = Were the outcome measures reliable? (if not describe, assume no);
- 9 = Were the outcome measures valid? (if not described, assume no);
- 10=Was intervention described in detail?
- 11=Were results reported in terms of statistical significance?
- 12=Were the analysis methods appropriate?
- 13=Clinical importance was reported?
- 14=Conclusions were appropriate given the study methods?
- 15=Are there implications for clinical practice given the results of the study?
- 16=Were limitations of the study acknowledged and described by the authors?

Scores of items: 0 = does not meet criterion; 1 = satisfies criterion; ? = not clearly described;

NA = not applicable.

Bijlage C – Scoring van de studies aan de hand van de Critical Review Form-Quantitative Studies

Scores of items: 0 = does not meet criterion; 1 = satisfies criterion; ? = not clearly described; NA = not applicable.

AUTERS	VRAGEN																Totaal	Risico op bias
	V1	V2	V3	V4	V5	V6	V7	V8	V9	V10	V11	V12	V13	V14	V15	V16		
Ayaz et al., (2013).	1	1	1	0	1	1	0	0	0	NA	1	1	0	1	1	1	10	Gemiddeld
Beckung & Uvebrant (1993).	1	1	0	0	1	0	0	1	1	NA	0	1	1	1	0	0	8	Gemiddeld
Beckung et al., (1994)	1	1	1	0	1	0	0	0	1	1	1	1	0	1	0	1	10	Gemiddeld
Boelen et al., (2005)	1	1	1	1	1	1	1	1	0	NA	1	1	1	1	0	1	13	Laag
Braathen et al., (1997).	1	1	1	1	1	0	0	0	0	1	1	1	1	1	0	1	11	Gemiddeld
Maalouf et al., (2006).	1	0	1	0	1	0	1	0	0	NA	1	1	0	1	1	1	9	Gemiddeld
Reijs et al., (2010).	1	1	1	0	1	1	0	0	0	NA	1	1	1	1	0	1	10	Gemiddeld
Roy et al., (2011)	1	1	1	0	1	0	1	0	0	NA	1	1	0	1	1	1	10	Gemiddeld

Verheyen et al., (2019).	1	1	1	1	1	0	1	0	0	NA	1	1	0	1	1	1	11	Gemiddeld
Verheyen et al., (2020).	1	1	1	1	1	0	1	0	0	NA	1	1	0	1	1	1	11	Gemiddeld