



rijksuniversiteit  
groningen

# Onderzoek naar mensen met een beperking

*Een literatuurstudie naar de kwaliteit van onderzoek naar mensen met (zeer) ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen*

*Masterthesis Orthopedagogiek*

Naam: Elle Kea de Boer

Studentnummer: S2176327

Eerste beoordelaar: Prof. Dr. A.A.J. van der Putten

Tweede beoordelaar: Dr. J. Knot – Dickscheit

Mastertrack Orthopedagogiek

Rijksuniversiteit Groningen

Faculteit der Gedrags- en Maatschappijwetenschappen,

Februari 2022

11.065 woorden

## Abstract

*Background:* With increasing attention for research into individuals with profound intellectual and multiple disabilities [PIMD], the aim of this study was to systematically review intervention studies in these people in order to be able to generate knowledge related to the quality of these studies.

*Method:* A systematical review based of empirical studies from a database collected by the Academic Collaborative Centre for PIMD [ACC-PIMD], including 212 studies published between 2005 and 2020, was conducted. Data were extracted regarding the aim of the study, studydesign, participants, interventions and measuring-instruments. The quality of the studies was analyzed using the Mixed Methods Appraisal Tool [MMAT].

*Results:* Of 212 studies reviewed, 25 intervention studies were included. There was diversity among research designs: 15 quantitative, descriptive studies, 6 non-randomized control trails, 2 mixed methods-studies, 1 qualitative and 1 randomized control trail. With MMAT-scores ranging between 0/0% and 5/100%, 7 studies gained a 5/100% MMAT-score, 18 studies gained a 4/80% MMAT-score. Different types of interventions were examined, with the majority being microswitch technology based interventions (n=9, 36%). Most studies included 2 (n=5, 20%) or 3 (n=5, 20%) participants. The number of intervention sessions ranged between 1 and 689 sessions, with a mean of 93 sessions, mostly with a duration of 10 minutes. In the studies, the following measurements were used: sensors and microswitch technology (n=12, 48%), observations (n= 15, 60%), behavioral scales (n=2, 8%), interviews (n=2, 8%) and surveys (n=3, 12%). The quality of these measurements varied.

*Conclusions:* This study shows that intervention studies conducted into people with PIMD are characterized by a high quality. However, the measurements used and described quality of these measurement was limited and need more attention. There was diversity among the types of intervention.

## Samenvatting

*Achtergrond:* Door toenemende aandacht voor onderzoeken naar mensen met (Zeer) Ernstige Verstandelijke en Meervoudige Beperkingen [ZEVMB] en de problemen die zich daarbij voordoen, was het doel van dit onderzoek de kwaliteit en karakteristieken van onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB in kaart te brengen.

*Methode:* Een systematisch literatuuronderzoek is uitgevoerd op 25 geïncludeerde interventiestudies afkomstig uit een database van 212 studies, gepubliceerd tussen 2005 en 2020, verzameld door de Academische Werkplaats EMB. De data is samengevat op basis van doel, onderzoeksdesign, participanten, interventie en gehanteerde meetinstrumenten. De kwaliteit van de onderzoeksdesigns is bepaald met de *Mixed Methods Appraisal*[MMAT]-*Tool*.

*Resultaten:* Van de 212 studies uit de database, zijn 25 interventiestudies geïncludeerd. De onderzoeksdesigns waren divers: 15 kwantitatief, discriptieve onderzoeksdesigns (60%), 6 niet-gerandomiseerde controle studies, 2 gemixte methode-designs, 1 kwalitatieve studie en 1 gerandomiseerde controle studie. Zeven studies hadden een 5/100%-MMAT-score, 18 studies hadden een 4/80% MMAT-score, met een MMAT-score variërend van een 0/0% tot 5/100%. Veel studies telden 2 (n=5, 30%) of 3 (n=5, 20%) participanten. De interventiesessies varieerden van 1 tot 689 sessies, met een gemiddelde van 93 interventiesessies van 10 minuten. Bij 10 studies was sprake van een *follow-up*. In de studies werden verschillende typen interventies onderzocht, waarbij een meerderheid een op microswitch technologie gebaseerde interventies betrof. Wat betreft meetinstrumenten werd er gebruik gemaakt van sensoren en microswitchtechnologie (n=12, 48%), observaties (n=15, 68%), vraag- en schaallijsten (n=2, 8%), enquêtes (n=3, 12%) en interviews (n=2, 8%). De kwaliteit van de meetinstrumenten was divers en soms twijfelachtig.

*Conclusie:* De afgelopen jaren zijn er diverse onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB gedaan, van hoge kwaliteit met een grote kennisopbrengst en *evidence based* interventies. De variatie in meetinstrumenten en de beschreven kwaliteit is beperkt en verdient aandacht.

# Inhoudsopgave

1.1   Achtergrond.....	5
1.2   Probleemstelling.....	9
1.3   Onderzoeksvragen.....	10
<b>Hoofdstuk 2   Methode.....</b>	<b>11</b>
2.1   Literatuuronderzoek.....	11
2.2   Inclusie- en exclusiecriteria.....	11
2.3   Inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid.....	12
2.4   Analyse.....	12
<b>Hoofdstuk 3  Resultaten.....</b>	<b>13</b>
3.1   Selectie van de Studies.....	13
3.2   Algemene kenmerken van de studies.....	13
3.4   Karakteristieken en kwaliteit van de onderzoeksdesigns.....	23
3.4.1   Type onderzoeksdesigns.....	23
3.4.2   Aantal sessies, duur van de sessies, duur van het onderzoek en follow-ups.....	23
3.4.3   MMAT-score.....	23
3.5   Karakteristieken gehanteerde meetinstrumenten.....	24
3.5.1   Sensoren en micro-switchtechnologie.....	25
3.5.2   Observaties.....	25
3.5.3   Diagnostische vraag- en schaallijsten.....	26
3.5.4   Medisch hulpmiddel.....	26
3.5.5   Enquêtes.....	26
3.5.6   Semi-gestructureerde interviews.....	27
<b>Hoofdstuk 4  Conclusie &amp; Discussie.....</b>	<b>28</b>
4.1.  Belangrijkste bevindingen.....	28
4.2   Theoretische reflectie.....	29
4.3   Methodologische reflectie.....	32
4.4   Implicaties voor vervolgonderzoek.....	33
4.5   Implicaties voor de praktijk.....	34
<b>Literatuurlijst.....</b>	<b>35</b>
<b>Bijlagen.....</b>	<b>44</b>
Bijlage A   Tabel MMAT-score geïncludeerde studies.....	45

# Hoofdstuk 1 | Inleiding

## *1.1 | Achtergrond*

Onderzoek naar mensen met (Zeer) Ernstige Verstandelijke en Meervoudige Beperkingen [ZEVMB] is een relatief jong onderzoeksgebied en met name de laatste jaren is onderzoek naar deze doelgroep toegenomen (Maes et al., 2021; Van der Putten, Ter Haar, Maes & Vlaskamp, 2015). Onder mensen met (Z)EVMB worden mensen verstaan met een ernstige of zeer ernstige verstandelijke beperking, dusdanig laag van niveau dat het intelligentieniveau niet betrouwbaar en valide te meten is met bestaande gestandaardiseerde instrumenten. Daarnaast is er bij deze doelgroep sprake van ernstige of zeer ernstige motorische problemen, waardoor zij vaak niet instaat zijn zich zelfstandig voort te bewegen (Nakken & Vlaskamp, 2007). Door de verschillende combinaties van beperkingen bij mensen met (Z)EVMB is er bij deze groep sprake van een grote variatie wat betreft cognitieve-, motorische-, zintuiglijke- en sociaal emotionele mogelijkheden (Van der Putten, Vlaskamp, Luijkx en Poppes, 2017). Een gemeenschappelijk kenmerk van deze mensen is, dat ze in alle aspecten van hun dagelijks leven volledig afhankelijk zijn van zorg en ondersteuning door anderen (Maes, Lambrechts, Hostyn en Petry, 2007).

Maes et al. (2021) hebben in kaart gebracht met welke methodologische problemen en uitdagingen onderzoekers te maken krijgen bij het onderzoek naar en met mensen met (Z)EVMB. Zij onderscheiden de volgende methodologische problemen en uitdagingen: 1) Afbakening van de doelgroep/populatie; 2) Werving van participanten; 3) Data collectie en meetinstrumenten; 4) Data analyse; 5) Ethiek; En 6) Theoretische modellen.

Afbakening van de doelgroep blijkt lastig, omdat er mensen met (Z)EVMB, door de diverse combinaties van verstandelijke en lichamelijke beperkingen en mogelijkheden, een zeer heterogene doelgroep vormen (Van der Putten et al., 2017; Maes et al., 2007; Nakken & Vlaskamp, 2007). Het trekken van een grens over welke persoon wel of niet onder de doelgroep (Z)EVMB valt is lastig en de grens vaag. Bovendien worden er in onderzoeken verschillende terminologie gehanteerd om de onderzoeksgroep te definiëren. En wordt niet altijd de juiste term voor de onderzoekspopulatie gehanteerd, mede door het ontbreken van een diagnose voor deze doelgroep (Nakken & Vlaskamp, 2007).

Bij het verzamelen van informatie over deze doelgroep ten behoeve van onderzoek, moeten diverse zoektermen worden gebruikt (Maes et al., 2021; Nakken & Vlaskamp, 2007). Van der Putten en Grietens (2014) stellen dat een duidelijke beschrijving en afbakening van de doelgroep noodzakelijk is om in studies na te gaan of de onderzochte interventie ook voor deze doelgroep ontwikkeld en geschikt is, maar ook om zicht te krijgen om de omvang van de groep en dus in welke omvang de interventie uit moet worden gezet.

Een tweede onderzoeksprobleem door Maes et al. (2021) beschreven, betreft de werving van participanten, waardoor veel studies naar mensen met (Z)EVMB gekenmerkt worden door een beperkte populatiegrootte. Uit het inventarisatieonderzoek van Vugteveen, van der Putten en Vlaskamp (2014) blijkt dat de groep mensen met (Z)EVMB in Nederland klein is en ‘slechts’ circa tien procent van alle mensen met een verstandelijke beperking omvat. Bijkomend probleem is het eerder benoemde definiëringsprobleem. Daarnaast maakt heterogeniteit als gevolg van de diverse combinaties van verstandelijke en motorische beperkingen en mogelijkheden dat de prevalentiecijfers van deze doelgroep laag zijn. Ook blijken de rekruteerkanalen om participanten te benaderen voor onderzoek beperkt en vaak al door verschillende onderzoekers gebruikt (van Keer et al., 2017). Ook blijkt het motiveren van verwanten en betrokken zorgprofessionals voor betrokkenheid bij het onderzoek lastig, doordat deze te maken hebben met beperkte beschikbare tijd, vanwege de zorg voor hun kind of werkdruk (Luijckx, van der Putten, & Vlaskamp, 2017). Tevens worden door Maes et al. (2021) de gezondheidsproblemen beschreven die kenmerkend zijn voor mensen met (Z)EVMB tot (vroegtijdige) uitval leiden. Van Timmeren et al. (2017) tonen aan dat 70% van de participanten met (Z)EVMB aan epilepsie lijdt, 56% aan visuele problemen en 63% aan spasticiteit. Zij stellen dat er veel meer epidemiologische gegevens nodig zijn om inzicht te krijgen in clusters van gezondheidsproblemen bij mensen met (Z)EVMB, om zo meer inzicht te krijgen in de hoge sterftcijfers onder deze doelgroep. Een beperkte populatiegrootte maakt generaliseerbaarheid van de resultaten lastig en kan tot selectie bias leiden (Maes et al., 2021). Ook heeft het de nodige consequenties voor de designs die gehanteerd kunnen worden binnen bijvoorbeeld interventiestudies.

Bij de datacollectie en het gebruik van meetinstrumenten hebben onderzoekers te maken met de beperkte beschikbaarheid van meetinstrumenten, specifiek ontwikkeld voor deze doelgroep (Maes et al., 2021). Wessels, van der Putten en Paap (2021) toonden aan dat meer dan driekwart van de meetinstrumenten die in onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB werden

gebruikt, niet voor deze doelgroep is ontwikkeld en/of de informatie over de kwaliteit van de meetinstrumenten veelal ontbreekt. Maes et al. (2021) geven aan dat de kwaliteit van een onderzoek grotendeels afhankelijk is van de mate van betrouwbaarheid en validiteit van de metingen. Maar ook van de navolgbaarheid en transparantie van het onderzoeksproces. Bovenstaande is in het onderzoek bij mensen met (Z)EVMB veelal een discussiepunt, vanwege het feit dat er voor deze doelgroep vaak geen specifieke meetinstrumenten beschikbaar zijn en onderzoekers genoodzaakt zijn om ongevalideerde meetinstrumenten of meetinstrumenten die ontwikkeld zijn voor andere doelgroepen, te gebruiken (Hostyn, Daelman, Janssen en Maes, 2010). Het gebruik van meetinstrumenten die eigenlijk voor andere doelgroepen zijn bedoeld, brengt het risico met zich mee dat deze instrumenten geen rekening houden met de kenmerken die horen bij mensen met (Z)EVMB. Het gevolg hiervan kan zijn dat de mensen met (Z)EVMB worden onderschat, doordat zij in vergelijking met de andere doelgroep veel lager scoren (Houwen, Visser, van der Putten en Vlaskamp, 2016).

Naast de problemen rondom het gebruik van geschikte meetinstrumenten voor deze onderzoeksgroep, speelt ook het moeilijke interpreteerbare gedrag van mensen met (Z)EVMB mee. Hierdoor is het lastig om te beoordelen wat de betekenis is van bepaald gedrag of signalen. Door de combinatie van verstandelijke en motorische beperkingen en zintuiglijke, gezondheids-, en gedragsproblemen vinden gedragingen en communicatie van deze doelgroep veelal op een meer onconventionele manier plaats (Van der Putten et al. 2017). Dat maakt volgens Maes (2014) dat het verzamelen van data bij mensen met (Z)EVMB tijdsintensiever en complexer is dan het afnemen van enkele standaard testen. De onderzoeker moet over kennis en vaardigheden beschikken op het gebied van communicatie en interactie, zodat zij de communicatieve mogelijkheden van mensen met (Z)EVMB zien. Ook moeten onderzoekers strategieën in huis hebben om een responsieve en ondersteunende communicatiepartner te zijn en op die manier meer kansen bieden tot interactie en participatie. Vlaskamp en Cuppen-Fonteine (2007) geven aan dat een mogelijke oplossing hiervoor is, om de betrokken professionals of ouders van de participanten met (Z)EVMB te betrekken bij het coderen en interpreteren van verkregen data. Zo hoeft de onderzoeker niet volledige kennis van de participant(en) te hebben en kan gebruik worden gemaakt van de kennis die er al is. Een voorbeeld hier van is ‘*Triangulated Proxy Reporting*’ van Lyons, De Bortoli en Arthur-Kelly (2017), waarbij twee bekende communicatiepartners van de persoon met (Z)EVMB, apart van elkaar, worden ingezet om het geobserveerde gedrag van de persoon met (Z)EVMB te vertalen voor de onderzoeker.

Bij de data-analyse spelen de eerdere beschreven problemen van het afbakenen van de doelgroep, werven van participanten, data-verzameling en geschikte meetinstrumenten van de doelgroep, een rol. Hoewel onderzoekers zich vaak bewust zijn van de heterogeniteit van beperkingen en mogelijkheden die zo kenmerkend is voor deze doelgroep, is het in de data-analyse niet altijd mogelijk om rekening te houden met die variaties. Door de beperkte populatiegroottes is het vaak lastig om de analyses uit te voeren op subgroepen, vergelijkingsgroepen te maken of bepaalde beperkingen als beïnvloedende factor in het analyseproces mee te nemen (Maes et al., 2021). Door de heterogeniteit op individueel niveau blijkt het eveneens lastig om de onderzoeksresultaten op populatieniveau betekenis te geven (Bossink, van der Putten, Waninge en Vlaskamp, 2017).

Een ander probleem dat door Maes et al. (2021) bij de data-analyse wordt genoemd, is dat als gevolg van de beperkte populatiegrootte, onderzoekers gedwongen worden gebruik te maken van non-parametrische analyses, omdat niet aan de vereiste assumpties voor parametrische analyses kan worden voldaan. Dit is nadelig, omdat non-parametrische analyses in vergelijking met parametrische analyses minder power hebben, waardoor de kans kleiner is dat een fout wordt opgemerkt. Dit leidt er toe dat onderzoek naar en bij mensen met (Z)EVMB vaak descriptief is en bewijs voor de effectiviteit van interventies, ontwikkeld voor mensen met (Z)EVMB, ontbreekt (Maes et al., 2021; Vlaskamp en Nakken, 2008).

Een laatste probleem waar onderzoekers bij de data-analyse mee te maken krijgen, is dat het lastig blijkt om een geschikte controlegroep te vinden. Door de eerdere genoemde complexiteit van de beperkingen en de heterogeniteit van de doelgroep, blijkt het lastig om matchende groepen te vinden voor de participanten in het onderzoek. Controlegroepen kunnen helpend zijn bij het onderbouwen van de gevonden resultaten en de effectiviteit van interventies aan te tonen (Maes et al., 2021).

Vanuit ethische oogpunt is het lastig om het ‘*informed consent*’ van mensen met (Z)EVMB te verkrijgen, evenals het meenemen van hun ‘stem’ in het onderzoek (Maes et al., 2021). Hoewel veel landelijke wetgeving het vaak wel mogelijk maakt dat dat er middels een zogenaamde ‘*proxy consent*’ toestemming voor deelname wordt verkregen. Blijken sommige ouders en/of verzorgers hieromtrent tot onzeker te zijn over hun rechten (Maes et al., 2021). Ook is er steeds meer aandacht voor het meenemen van de ‘stem’ van de persoon met (Z)EVMB. In de onderzoekspraktijk blijkt eveneens een uitdaging door de beperkte (communicatie) mogelijkheden van een persoon met (Z)EVMB (Maes et al., 2021).



Doordat onderzoek naar mensen met (Z)EVMB een relatief jong onderzoeksgebied is, ontbreken theoretische modellen specifiek voor deze doelgroep. Dit leidt ertoe dat onderzoekers vaak genoodzaakt zijn om algemene theorieën, gericht op mensen zonder beperkingen of mensen met minder ernstige beperkingen te gebruiken. Door de eerdere genoemde complexiteit van de beperkingen en de heterogeniteit van verstandelijke, motorische en zintuigelijke beperkingen en mogelijkheden in combinatie met eventuele gedragsproblemen die zo kenmerkend is voor deze doelgroep, is niet zeker of die algemene theorieën volledig toepasbaar zijn op de onderzoekspopulatie met (Z)EVMB (Maes et al., 2021; Maes et al., 2007).

### *1.2 / Probleemstelling*

Hoewel er de laatste jaren meer aandacht is gekomen voor onderzoek naar mensen met (Z)EVMB (Maes et al., 2021; Van der Putten et al. 2015), worden onderzoekers die onderzoek doen naar en met mensen met (Z)EVMB, blijvend geconfronteerd met methodologische problemen en uitdagingen (Maes et al., 2021). Zeker interventieonderzoeken bij mensen met (Z)EVMB zijn nog steeds exploratief van aard en de kwaliteit van deze onderzoeken lijkt gering (Van der Putten et al., 2015). Er is echter nog geen systematische analyse uitgevoerd bij de bestaande studies over welk onderzoek op welke manier is uitgevoerd bij deze doelgroep. Onbekend is welke gehanteerde onderzoeksdesigns en type instrumenten ingezet zijn en welke populatiegroepen zijn gehanteerd. Onbekend is bovendien welke onderzoeksdesigns en meetinstrumenten werkzaam zijn bij deze specifieke doelgroep. Om meer inzicht te krijgen in de kwaliteit van onderzoek naar mensen met (Z)EVMB zullen in deze systematische literatuurreview, interventieonderzoeken bij mensen met (Z)EVMB worden geanalyseerd.

Met de term ‘interventie’ wordt een interventieprogramma bedoeld die in een hulpverleningsetting wordt ingezet en die bestaat uit een geheel van hulpverleningsactiviteiten in de zorg met mensen met (Z)EVMB. Een interventieprogramma wordt gekenmerkt door goed omschreven doelen, gericht op het oplossen, verminderen of voorkomen van risico’s of problemen bij cliënten. Een interventieprogramma sluit daarnaast aan bij toepasselijke theorieën en hypothesen. Daarnaast is een interventieprogramma goed gedefinieerd wat betreft de inhoud en de doelgroep. Eveneens is een interventieprogramma in tijd gefaseerd ten aanzien van het bereiken van de doelen. En wordt het gekenmerkt door vooraf geplande evaluatiemomenten met bijbehorende evaluatiecriteria (van Loon, van der Meulen en

Minneart, 2015). In interventie onderzoeken wordt een bepaalde interventie op zijn effectiviteit onderzocht.

De kennis uit deze systematische analyse is van belang om een basisoverzicht te creëren met betrekking tot onderzoekdesigns bij onderzoek naar mensen met (Z)EVMB én om aanbevelingen te doen voor toekomstig onderzoek naar mensen met (Z)EVMB. Daarnaast zal deze systematische analyse inzicht geven in de kwaliteit van de onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB, die helpend kan zijn in toekomstige studies naar mensen met (Z)EVMB.

### *1.3 / Onderzoeksvragen*

Het doel van het onderzoek is, om door middel van een systematische literatuurstudie, een overzicht te bieden met betrekking tot de gebruikte methodologie en kwaliteit van onderzoekdesigns in interventieonderzoeken naar mensen met (Z)EVMB. Dit wordt getracht te verwezenlijken middels de volgende hoofd- en deelvragen:

#### Hoofdvraag:

*Welke kenmerken en kwaliteit hebben interventiestudies gericht op mensen met (Z)EVMB?*

#### Deelvragen:

- *Welke onderzoekdesigns worden gehanteerd bij interventieonderzoeken bij mensen met (Z)EVMB en wat kenmerkt deze designs?*
- *Welke meetinstrumenten worden gehanteerd in interventieonderzoeken naar mensen met (Z)EVMB en wat kenmerkt deze meetinstrumenten?*

## Hoofdstuk 2 | Methode

### 2.1 | Literatuuronderzoek

Het onderzoeksdesign betreft een systematische literatuurreview, uit een databestand met 212 wetenschappelijke studies, geïncludeerd door de Academische werkplaats EMB – onderdeel van de Rijksuniversiteit Groningen [RUG]. De systematische literatuurreview is uitgevoerd aan de hand van de PRISMA-statement (Moher, Liberati, Tetzlaff, Altman en The Prisma Group, 2009).

### 2.2 | Inclusie- en exclusiecriteria

Tijdens het de screening van de studies zijn de in- en exclusiecriteria, zoals weergegeven in tabel 1, gehanteerd:

**Tabel 1**

*Inclusie- en exclusiecriteria geïncludeerde studies*

Selectieronde	Inclusiecriteria	Exclusiecriteria
<b>Pre-screening</b>	<ul style="list-style-type: none"><li>▪ Geschreven in 2008 of later;</li><li>▪ Geschreven in het Engels of Nederlands;</li><li>▪ Peer-reviewed;</li><li>▪ Toegang tot full-tekst;</li></ul>	<ul style="list-style-type: none"><li>▪ Geschreven voor 2008;</li><li>▪ Geschreven in een andere taal dan het Engels of Nederlands;</li><li>▪ Niet peer-reviewed;</li><li>▪ Geen toegang tot full-tekst;</li><li>▪ Het betreft een dubbel artikel.</li></ul>
<b>Selectie 1</b> [Title + Abstract]	<ul style="list-style-type: none"><li>▪ De doelgroep van de studie betreft mensen met (Z)EVMB, zoals beschreven door Nakken en Vlaskamp (2007);</li><li>▪ Het betreft een interventieonderzoek, waarbij (een) hulpverleningsactiviteit(en) doelgericht worden ingezet gericht op het oplossen, verminderen of voorkomen van risico's of problemen bij cliënten;</li><li>▪ Het betreft geen herhaling of uitbreiding van een eerder onderzoek.</li></ul>	<ul style="list-style-type: none"><li>▪ De doelgroep van de studie voldoen qua karakteristieken niet aan de beschrijving (Z)EVMB van Nakken en Vlaskamp (2007);</li><li>▪ Het betreft geen interventieonderzoek;</li><li>▪ Het betreft een systematisch literatuuronderzoek;</li><li>▪ Het betreft een herhaling of uitbreiding van een eerder onderzoek.</li></ul>
<b>Selectie 2</b> [Full-Text]		
<b>Selectie 3</b> [Full-Tekst]		

Op basis van de artikelen van Maes et al. (2007) en Vlaskamp en Nakken (2008) is ervoor gekozen alleen studies gepubliceerd vanaf 2008 te includeren. Om op deze manier de meest recente kennis binnen het huidige onderzoek te betrekken.

Wat betreft de populatie, is een strikte definitie van de doelgroep gehanteerd. En zijn enkel studies geïncludeerd waarbij de participanten voldoen aan de omschrijving van (Z)EVMB door Nakken en Vlaskamp (2007): Dat er sprake is van een IQ-score van minder dan 20 punten en/of een ontwikkelingsleeftijd tot 24 maanden, in combinatie met (zeer) ernstige motorische beperkingen.

In verband met een beperkte tijdsduur van het onderzoek, evenals een limiet aan het aantal woorden dat mag worden gebruikt, is ervoor gekozen om studies die een herhaling of uitbreiding van eerdere onderzoeken zijn, te excluseren.

### *2.3 / Inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid*

Ter controle van de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van het selecteren van studies op basis van de titels en abstracts, heeft een mede-onderzoeker een selectie uitgevoerd op 10% van de artikelen (n= 21) uit de eerder beschreven literatuuurdatabase op basis van de beschreven inclusie- en exclusiecriteria.

De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid hiervan is bepaald door middel van berekening van Cohen's Kappa. Een waarde van Cohen's Kappa van '0' duidt op geen overeenstemming en een waarde van '1' op perfecte overeenstemming (Landis en Koch, 1977). De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid resulteerde in dit onderzoek in een Cohens Kappa van 1,0. Ter controle van de intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid heeft de onderzoeker, na 2 maanden, nogmaals een selectie uitgevoerd op 10% van de artikelen (n = 21) uit de eerder beschreven database op basis van titel en abstract en de inclusie- en exclusiecriteria. De intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid – eveneens berekend en uitgedrukt in Cohen's Kappa – resulteerde in een Cohens Kappa van 1,0.

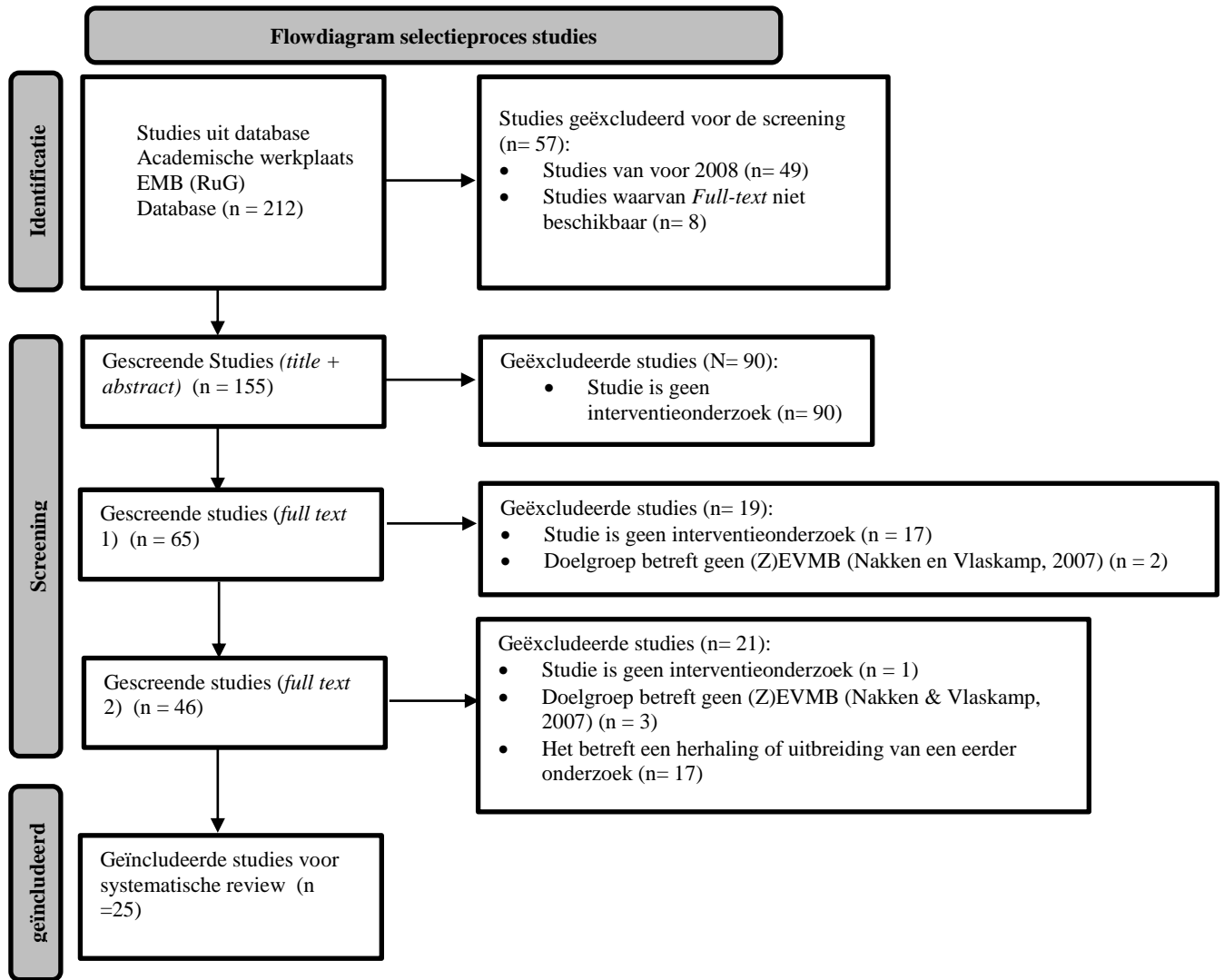
### *2.4 / Analyse*

De 25 geïncludeerde studies zijn gecodeerd op basis van hun doel, onderzoeksdesign, participanten, interventie en de gehanteerde meetinstrumenten. De kwaliteit van de onderzoeken is geanalyseerd aan de hand van de Mixed Methods Appraisal Tool [MMAT] (Hong et al., 2018a). De MMAT-checklist is een instrument om de (methodologische) kwaliteit van onderzoek te controleren (Hong et al., 2018a; Hong et al., 2018b). Per type onderzoek (kwalitatief, randomised controlled trial, niet-gerandomiseerd, kwantitatief-discriptief en mixed methodes studies) zijn er twee screeningsvragen en vijf kerncriteria die het meest relevant zijn voor dat type onderzoek. Iedere criteria kan worden beoordeeld met 'ja', 'nee' of 'niet te zeggen' (Hong et al., 2018b). De ontwikkelaars van de MMAT-checklist raden af om een totale score te berekenen, maar adviseren een meer gedetailleerde presentatie van de scores op ieder criterium te geven (Hong et al., 2018b).

# Hoofdstuk 3 | Resultaten

## 3.1 | Selectie van de Studies

Van de 212 artikelen uit de eerder beschreven database, werden uiteindelijk 25 studies geïncludeerd (zie figuur 1 voor de dataselectie).

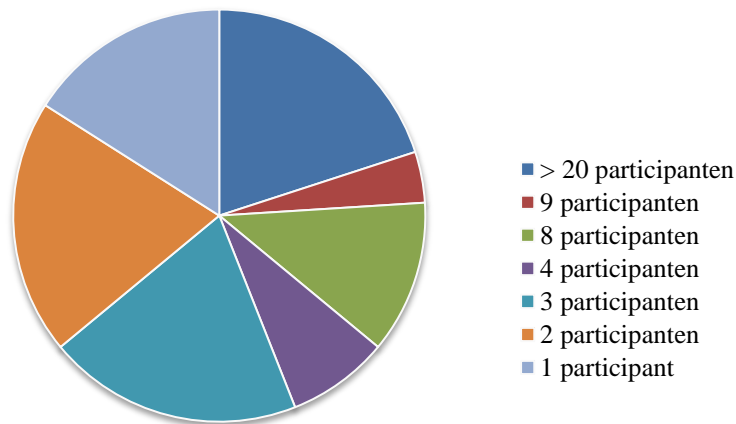


Figuur 1 | Flowdiagram van het studie selectieproces

## 3.2 | Algemene kenmerken van de studies

Een overzicht van de kenmerken van de studies is weergegeven in tabel 2. In totaal hebben 282 participanten met (Z)EVMB meegedaan binnen de 25 geïncludeerde studies, 74 man en 66 vrouw. Van 142 participanten is het geslacht niet duidelijk. Negen van de 25 studies (36%) richten zich op kinderen en jongeren (< 18 jaar), 8 studies (32%) gingen over volwassenen (>18 jaar) en bij 8 studies (32%) betrof de participantengroep zowel jeugdigen als volwassenen met (Z)EVMB. De leeftijdrange van de participanten met (Z)EVMB liep van 4 tot 70 jaar.

Het aantal participanten met (Z)EVMB varieerde van 1 participant tot 76 participanten, met een gemiddelde van 12 participanten. Een minderheid van de studies (n=5, 20%) heeft een populatiegrootte van 20 of meer participanten (zie figuur 2). De overige studies (n=20, 80%) hebben een populatiegrootte van minder dan 10 participanten (zie figuur 2). Het meest voorkomend was een populatiegrootte van 2 (n=5, 20%) of 3 (n=5, 20%) participanten met (Z)EVMB.



**Figuur 2 | Participanten met (Z)EVMB per studie**

Bij vijf studies (20%) was sprake van een onderzoek met *dyades*, koppels bestaande uit een persoon met (Z)EVMB en een begeleider of ouder/verzorger. Het aantal dyades varieerde van 3 dyades (n=1, 4%), 4 dyades (n=1, 4%), 8 dyades (n=1, 4%), 48 dyades (n=1, 4%) en 76 dyades (n=1, 4%). In totaal deden 189 ‘begeleiders’ mee.

Bij 21 studies (84%) was sprake van een interventie die direct gericht was op de participant met (Z)EVMB. Bij de andere 4 studies (16%) was sprake van een mediërende interventie, waarbij begeleiders deelnamen aan de interventie om daarmee bepaald doelgedrag te stimuleren bij mensen met (Z)EVMB.

Een meerderheid van de studies ging over een interventie met microswitch technologie (n=9, 36%), waarvan 3 studies gericht waren op het kunnen weergeven van voorkeur, 5 studies gericht waren op ‘bewegen’ en 1 studie gericht was op de houding van de participant met (Z)EVMB. Totaal 4 studies betroffen een interventie gericht op de begeleiders (de eerder beschreven mediërende studies), drie studies (12%) gingen over *Multi-sensory storytelling* [MSST] en twee studies (8%) over *Shared Stories*. De overige studies (n=11, 44%) richtten zich op diverse andere onderwerpen, zoals snoezelruimtes, dagbestedingsactiviteiten en *biomusic*.

Tabel 2 | Resultaten

Studie	Doel	Design	Participanten	Interventie	Meetinstrument(en)	MMAT-Score
<b>Kwalitatieve studies</b>						
<b>Blain-Moraes et al. (2013)</b>	Analyse van de effecten van <i>biomusic</i> op de communicatie tussen personen met (Z)EVMB en ouders/begeleiders.	Kwalitatief, exploratieve studie, met 3 <i>dyades</i> (1 participant met (Z)EVMB, 1 ouder, en 1 à 2 begeleiders).	N = 3 <i>dyades</i>  Participanten met (Z)EVMB N= 3 (2M, 1V), (Z)EVMB X= R: 12 – 27 jaar  Ouders/begeleiders: N= 10 ( 3 ouders, 7 begeleiders)	Voorafgaand: biomusic creëren (galvanische huidreactie lichaamstemperatuur, bloedvolume pulse en ademhaling).  Interventie: afspelen van biomusic tijdens 4 interactiesessies met de <i>dyades</i> à 10 minuten.	Galvanische huidreactie, lichaamstemperatuur, bloedvolume pulse en ademhaling voor biomusic: <ul style="list-style-type: none"> <li>4 niet-invasieve sensoren op verschillende vingers (linkerhand)</li> </ul> Effect van <i>biomusic</i> op de interactie: <ul style="list-style-type: none"> <li>Semi-gestructureerde interviews met een open einde.</li> </ul>	5/100 <sup>1</sup>
<b>Gerandomiseerde Controle studies [RCT]</b>						
<b>Bossink et al. (2017)</b>	Potentiële effecten van een <i>Power-assisted exercise</i> -interventie evalueren.	RCT Interventiegroep: n=19, Controle groep: n= 18  Randomisatie van twee gelijke groepen op basis van met geslacht, leeftijd en motorisch functioneren.	N =37, (Z)EVMB X = 37;1 jaar (M, SD:14;6)  Geschat IQ lager dan 20-25 punten; ontwikkelingsleeftijd tot 24 maanden; (zeer) ernstige motorische beperkingen.	Interventiegroep: Power-assisted exercise-interventie (o.a. sit ups, heupflexie, het spreiden en sluiten van armen en benen), 6 <i>powered-exercise</i> apparaten: 3 keer per week à 30 minuten gedurende 20 weken.  Controle groep: reguliere zorgprogramma.	Effecten: <ul style="list-style-type: none"> <li>Functionele vaardigheden: BAS;</li> <li>Alertheid: AOL;</li> <li>Lichaamssamenstelling:BM;</li> <li>Spierkracht: MAS;</li> <li>Zuurstof verzadiging : vinger polsslag oximeter;</li> <li>Cardiovasculaire fitheid: vinger polsslag oximeter;</li> <li>Kwaliteit van leven: QOL-PMD</li> </ul>	5/100% <sup>1</sup>
<b>Niet-Gerandomiseerde Controle Studies [NRCS]</b>						
<b>Fava &amp; Strauss (2010)</b>	Analyse van effecten van <i>Multi-sensory environments</i> effect op disruptief en pro-sociaal gedrag bij mensen met (Z)EVMB en autisme.	NRCS met drie groepen, ingedeeld op basis van diagnose.	N = 27 X = 37;8 (M, R:30-48)  Verdeeld in drie groepen: G1: N=9, autisme, goede motorische vaardigheden, beperkte taalvaardigheden. G2: N= 9, diepe verstandelijke beperking, goede motorische vaardigheden G3: N= 9, (Z)EVMB, diepe verstandelijke beperking, zeer beperkte motorische vaardigheden, zeer beperkte Taalvaardigheden.	Ervaren van voorkeursstimuli in de woonkamer, snoezelruimte en <i>Multi-sensory environments</i> .  Iedere participant nam deel aan één conditie, 3 keer per week à 25 minuten, gedurende 7 weken, met een totaal van 20 sessies.	Disruptieve en pro-sociale gedrag: <ul style="list-style-type: none"> <li>Observaties (video-opnames van iedere sessie, 2 videocamera's).</li> <li>Scoren met geoperationaliseerde lijst doelgedrag.</li> </ul>	4/80% <sup>1</sup>

<b>Fleming et al. (2010)</b>	Onderzoeken of de duur van de oogopslag kan worden gebruikt om versterkende prikkels bij mensen met (Z)EVMB te identificeren.	NRCS met ABCABC-design.	N= 4 (2M, 2V), (Z)EVMB X= respectievelijk 14, 18, 19 en 21 jaar  (zeer) enstige verstandelijke en motorische beperkingen, cerebrale parese, epileptische stoornis, corticale visuele beperking, communicatieve beperkingen.	Kiezen van stimulus door middel van de duur van de oogopslag.  Het aantal sessies varieerde per participant: P1: 25 sessies P2: 23 sessies P3: 21 sessies P4: 59 sessies*  Onvermeld: duur van de sessies en van het gehele onderzoek.  <i>*P4 heeft meer sessies (en de intervalluur werd verdubbelt), vanwege een afname van reageren tijdens de eerste sessies.</i>	Het meten van de duur van de oogopslag en keuze stimulus, werd geteld door een onderzoeker.	4/80% <sup>1</sup>
<b>Foreman et al. (2014)</b>	Analyse van de effecten van het communicatie mentor-model op de interactieve communicatievaardigheden van leerlingen met (Z)EVMB.	NRCS met ABAB-design + <i>Follow-up</i> meting na 1 maand	N = 8 (5M, 3V), (Z)EVMB X = R: 5 – 13 jaar  Afhankelijk van anderen om in basisbehoeften te voorzien; geen verbale vaardigheden; sensorische en ernstige motorische beperkingen.  Leraren en onderwijsassistenten N= 16 (8 om 8)	Implementatie van het communicatiementormodel in een segregéerd en een regulier klaslokaal met 4 leerlingen met (Z)EVMB en 8 leraren/onderwijsassistenten.  30 sessies à 90 minuten in het segregéerde leslokaal. 50 sessies à 90 in een reguliere leslokaal. De sessies vonden 2x per week plaats.	Het registreren van het niveau van alertheid: • Observatie (Interval coding (10s interval meeting, 10s rust). Kennis en ervaringen training leraren en onderwijsassistenten: • Observatie en scoren Procedurele checklist.	4/80% <sup>1</sup>
<b>Samuel et al. (2008)</b>	Analyse van de effecten van <i>Intensive Interaction</i> op: a) de communicatieve en sociale vaardigheden van mensen met (Z)EVMB; b) de relatie tussen beginnende begeleiders en participanten met (Z)EVMB.	NRCS met AB-design	N = 4V, (Z)EVMB X= respectievelijk 32, 56, 46 en 23 jaar.  Cerebrale parese, ernstige scoliose, microcephalie epilepsie, autistiforme kenmerken, rolstoelgebonden, Ontwikkelingsleeftijd tussen 0 – 13 maanden.  Begeleiders: N= 24 (23V, 1M) X = 9 <35 jaar; 15 >35 jaar Werkervaring: R: 4 – 8 jaar	Interactie tussen begeleiders en participanten aan de hand van <i>Intensive Interaction</i> , 5 sessies per week, gedurende 20 weken (totaal 100 sessies).	Communicatieve en sociale vaardigheden van de participanten met (Z)EVMB: • Observaties (video-opnames) en vragenlijsten ingevuld door begeleiders;  Relatie tussen de begeleiders en de participanten met (Z)EVMB: ▪ Directe observatie en directe rapportage.	4/80% <sup>1</sup>
<b>Ten Burg et al. (2016)</b>	Onderzoeken of : a)MSST-boeken meer aandacht trekken dan reguliere boeken; b) De activiteit van de luisteraars verschilt	NRCS, Interventiegroep: n = 45 Controlegroep: n = 31, 76 dyades (participant met (Z)EVMB en een begeleider (storyteller).	N=76 dyades  Participanten met (Z)EVMB: N= 76, (Z)EVMB X= 45% van de participanten > 18 jaar;	MSST-groep: voorlezen van het MSST-boek, 10 keer à 2 – 15 minuten gedurende 5 weken,  Controlegroep: voorlezen regulier boek, 10 keer gedurende 5 weken.	Registreren van aandacht van de participant op het boek: ▪ <i>Momentary interval coding</i> (iedere 2 seconde) ▪ Observaties (Video-opnames) ▪ Individueel gedragsprofiel voor	5/100% <sup>1</sup>



	tijdens het voorlezen van gepersonaliseerde – en ongepersonaliseerde MSST-boeken.	Selectie van controle- en interventiegroep: plaats op basis van moment van registratie.	Ontwikkelingsleeftijd < 2 jaar en (zeer) ernstige motorische beperkingen.  Begeleiders ( <i>storytellers</i> ): N = 76 X = 20 – 65 jaar ( <i>M</i> : 36;9, <i>SD</i> : 10;71)  De <i>storytellers</i> kozen zelf een participant met (Z)EVMB.	Bij beide groepen: Video-opname van de 1 <sup>e</sup> , 5 <sup>e</sup> en 10 <sup>e</sup> sessie. Met een totaal aantal van 216 opnames (12 opnames ontbreken door ziekte van een participant).	beoordeling gedrag participanten (Z)EVMB	
<b>Ten Burg et al. (2012)</b>	Analyse van de ontwikkeling, inhoud en gebruik van MSST-boeken bij mensen met (Z)EVMB in de praktijk.	NRCS, met twee groepen met <i>dyades</i> (participant met (Z)EVMB + bekende begeleider ( <i>storyteller</i> ).  Groep 1: 28 <i>storytellers</i> en 29 participanten met (Z)EVMB (één <i>storyteller</i> ontwikkelde een MSST-boek voor 2 participanten)  Groep 2: 20 <i>storytellers</i> en 20 participanten met (Z)EVMB.	N = 48 dyades  Participanten met (Z)EVMB: N = 49 (26M, 23V), (Z)EVMB (26 jeudigen, 23 volwassenen) X <sub>1</sub> = 10;3 jaar ( <i>M</i> , <i>R</i> : 4 – 15, <i>SD</i> : 3;9) X <sub>2</sub> = 38;5 ( <i>M</i> , <i>R</i> : 19 – 70, <i>SD</i> : 13;9)  <i>Storytellers</i> : N = 48 X = 38;4 ( <i>M</i> ) Werkervaring met mensen met (Z)EVMB: 10;6 jaar ( <i>M</i> , <i>R</i> : 2mnd – 31 jaar, <i>SD</i> : 7;8) Werkervaring met de participant: 3;6 ( <i>M</i> , <i>R</i> : 2 mnd – 15 jaar, <i>SD</i> : 3;3)	Groep 1: voorlezen MSST-boek (gemaakt aan de hand van de IPP) 2 keer per week, gedurende 10 weken.  Groep 2: voorlezen MSST-boek (gemaakt op basis van kennis uit ondersteuningsplannen) 2 keer per week, gedurende 5 weken (het verschil in duur van het onderzoek is gemaakt vanwege praktische redenen).	Het in kaart brengen van de ontwikkeling, inhoud en gebruik van MSST-boeken: <ul style="list-style-type: none"> <li>Observaties (Video-opnames) van de leessessies 1, 5, 10 en 20.</li> <li>PAMIS-guideline (richtlijnen MSST-boek).</li> </ul>	5/100% <sup>1</sup>
<b>Kwantitatief discriptief</b>						
<b>Bonnike, Douglas &amp; Stoner (2018)</b>	Analyse van de effecten van de positie van leerlingen met (Z)EVMB op de non-symbolische en symbolische communicatie met <i>peers</i> .	Kwantitatief, discriptieve studie met ABAB-design + <i>Follow-up</i> na 1 en 2 weken.	N= 3 (2M, 1V), (Z)EVMB X = Respectievelijk 10, 11 en 13 jaar.  Alle drie leerlingen hadden een zeer ernstige verstandelijke (geen IQ score) en lichamelijke beperking.	non-symbolische en symbolische communicatie (staren, vocalisatie, reiken naar en gebruik maken van SGD's, wanneer de leerlingen met (Z)EVMB op 0,6 meter afstand van elkaar zijn geplaatst in kaart brengen.  In totaal vonden er 34 sessies per leerling plaats.	Non-symbolische en symbolische communicatie (staren, vocalisatie, reiken naar en gebruik maken van SGD's): <ul style="list-style-type: none"> <li>Observatie (video-opnames 10 minuten iedere sessie)</li> <li>Een direct observatie registratiesysteem. Ingevuld door de onderzoeker tijdens het terugkijken van de sessieopnames.</li> </ul>	4/80 <sup>1</sup>
<b>Browder et al. (2008)</b>	Het identificeren van specifieke responsen op <i>shared stories</i> door de jeugdigen met (Z)EMVB.	Kwantitatief, discriptieve studie, met AB-design + <i>follow-up</i> .	N = 3 (2M, 1V), (Z)EVMB, X = respectievelijk 7, 7 en 10 jaar;  IQ < 20 punten, ontwikkelingsleeftijd < 1 jaar. O.a.: Spina bifida, hydrocefalie,	Responsen (aan de hand van de <i>Task Analysis</i> ) registreren tijdens het voorlezen van een prentenboek.  De interventie werd gedurende 3,5 maand, 3 keer per week à 30 minuten ingezet. Een	Participerende responsen tijdens de voorleessessies: <ul style="list-style-type: none"> <li>Observatie aan de hand van de <i>Task analysis</i>;</li> </ul> Effecten van de interventie na afloop in haar lessen	4/80% <sup>1</sup>

			epilepsie, (spastische) cerebrale parese, scoliose, microcefalie hemiplegie.	sessie was ten einde wanneer alle 16 stappen van de <i>Task analysis</i> waren gescoord.	▪ <i>Follow-up</i> enquête ingevuld door de vaste docente van de studenten.	
<b>Browder, Lee &amp; Mims (2011)</b>	Het evalueren van docent geïmplementeerde <i>Shared Stories</i> bij jeugdigen met (Z)EVMB.	Kwantitatief, discriptieve studie met AB-design.	N = 3 (1M, 2V), (Z)EVMB X = respectievelijk 8, 9 en 6 jaar.  Ernstige verstandelijke beperking, cerebrale parese, blind, rolstoelgebonden.  Leraren: N= 3 Respectievelijk 11, 19 en 4 jaar werkervaring met de doelgroep.	De <i>Shared stories</i> lessen (één-op-één) met systematische, verbale aansturing door de leraar gericht op verbinding en taalbegrip. De lessen vonden plaats in de klaslokaal van de participanten, 3 keer per week à 30 minuten.	Taalbegrip: • Observatie aan de hand van de <i>Task Analysis</i> : stap 1-7; met een – voor geen respons/error en + voor een correcte respons Verbinding met de taalactiviteit: • Observatie aan de hand van de <i>Task Analysis</i> : stap 8 – 17, met een scorerange van 0-3.	4/80% <sup>1</sup>
<b>Damen et al. (2014)</b>	Analyse van de instrumentele waarde van instersubjectiviteitstheorie voor het begrijpen en stimuleren van interpersoonlijke communicatie bij een adolescent met doofblindheid door middel van de HQC – interventie.	Kwantitatief, discriptieve, <i>single-case</i> studie, met ABAB-design	N = 1M, (Z)EVMB X = respectievelijk 19 jaar  Aangeboren doofblindheid, Golhar syndroom. Ontwikkelingsleeftijd: 2 -4 jaar. In het dagelijks leven afhankelijk van begeleiders.  Begeleiders: N= 3 X = 24, 41 en 49 jaar. Werkervaring: 24, 8 en 6 jaar; Werkervaring met participant: 16; en 3 jaar	Implementatie van HOQ-interventie voor het begrijpen en stimuleren van interpersoonlijke communicatie bij mensen met doofblindheid.  Implementatie vond plaats aan de hand van 2x 2 uur training en per begeleider 2 individuele video-feedbacksessies.	Interacties tussen de participant en de begeleiders • Observaties (video-opnames) • transcriptie beoordeling	4/80% <sup>1</sup>
<b>Dagache et al. (2019)</b>	De effecten van Tandemskiën op de zithouding en hartslag van jeugdigen met (Z)EVMB in vergelijking met een groep zonder beperkingen.	Kwantitatief, discriptief, <i>single-centre</i> onderzoek met twee groepen.	<u>Groep 1:</u> N= 20, (Z)EVMB X= 14;0 jaar ( $\pm 2$ ;8 jaar)  (Z)EVMB; IQ < 35 punten; motorische beperking (waardoor lopen in de omgeving niet mogelijk is).  <u>Groep 2:</u> N =20, TD (normale ontwikkeling) X = 13;7 jaar ( $\pm 3,0$ jaar)	Slalom activiteit met tandemski met (ervaren) piloot voor zowel groep 1 als groep 2: 1 afdaling met 6 bochten naar links en 6 bochten naar rechts, na een warming up van 5 à 10 minuten.  Alle gebruikte afdalingen waren gelijk qua steilheid, snelheid en breedte.	Het meten van snelheid, hartslag en houding: • 5 sensoren op het lichaam (hoofd, romp en bekken) en de stoel om	4/80% <sup>1</sup>

Tabel 2 | Resultaten – Vervolg

<b>Dutt et al. (2014)</b>	Onderzoeken of a) activatie van speelgoed invloed heeft de voorkeurscreening; b) direct manipuleren resulteert in grotere aandacht voor speelgoed; c) voorkeurscreening veranderd door het gebruik van microswitches vs. direct manipuleren van speelgoed	Kwantitatief, discriptieve studie met A-B-B-C design + post-vaardigheid voorkeurscreening na 7 weken.	N= 2V, (Z)EVMB X= respectievelijk 11 en 14 jaar  Ernstige verstandelijke beperking, cerebrale parese (p1), autisme (p1), Sturge-Weber syndroom (p2).;Niet mobiel en gebruikmakend van een rolstoel.	Observatie van de speelgoed en microwsitch toewijden, na het leren van motorische vaardigheden geleerd om het speelgoed te activeren.  Alle sessies duurden 3 minuten en werden opgenomen met een videocamera.  Onvermeld: duur van het onderzoek en totaal aantal sessies.	Speelgoed en microsiwtch toewijding: • Observatie (video-opnames) ▪ Een laptop met gedragsdata-verzamelingssoftware (o.a. Data-Pal)	4/80% <sup>1</sup>
<b>Lancioni et al. (2008a)</b>	Bepalen of kind met (Z)EVMB een moeilijke staanpositie beter kan volhouden wanneer hij toegang heeft tot voorkeurstimuli.	Kwalitieve, discriptief case raport met ABAB-design + post-interventiecheck na 2 en 3 maanden.	N= 1M, (Z)EVMB X= respectievelijk 4;6 jaar  (zeer) ernstige verstandelijke beperking, spastische tetraparese, ernstige scoliose, geen spraak- en zelfhulp vaardigheden, minimaal zichtvermogen en matig gehoorverlies.	Mircoswitch activatie voor voorkeurstimuli, terwijl de participant met (Z)EVMB in een speciaal ondersteuningsapparaat staat.  In totaal: 17 baseline sessies, 68 interventiesessies en 16 post-interventiechecksessies plaats à 5 minuten, 3 à 4 keer per dag .	Frequentie van microswitch activatie: • Elecktronisch controle apparaat;  Fysiek contact en verbondenheid met de stimuli en wobble microswitch; mate van blijheid en mate van ongenoegen: • Geregistreerd door een onderzoekassistent door middel van een partieel interval systeem (10s observatie, 5s registratie).	4/80% <sup>1</sup>
<b>Lancioni et al. (2008b)</b>	Onderzoeken of een man met (Z)EVMB geleerd kan worden om middels een hoofd-draai-respons optische sensoren, bevestigt op zijn schouder, te activeren om zo voorkeursstimulu te activeren.	Kwalitatieve, discriptief case report met ABAB-design en <i>follow-up</i> na 3 maanden	N = 1M, (Z)EVMB X = Respectievelijk 22 jaar  Zeer ernstige verstandelijke beperking, pervasive motorische beperkingen, rolstoel gebonden, minimaal gezichtsvermogen en geen spraakvermogen.	Een man met (Z)EVMB leren om door middel van hoofd-draai-response voorkeurstimuli (muziek) te activeren en tevens het kwijl bij zijn mond weg te vegen.  In totaal vonden er 15 baselinesessies, 66 interventiesessies en 12 follow-upsessies à 10 minuten plaatst.  De voorkeurstimuli werden bepaald naar aanleiding van een korte voorkeurscreening.  Onvermeld: de duur van het onderzoek	Registratie van de hoofd-draairesponsen • Autoomaatich via de sensoren en electronisch controle systeem.	4/80% <sup>1</sup>
<b>Lancioni et al. (2011)</b>	Onderzoeken of twee participanten met (Z)EVMB met behulp van microswitches en lachexpressies omgevingsstimuli	Kwalitief, discriptieve, met AB-design:	N = 2 (1M, 1V), (Z)EVMB X = respectievelijk 20 en 14 jaar.  Zeer ernstige verstandelijke beperking, encephalopathy, spastische tetraparese, epilepsie, beperkt	Het registreren van lachexpressieresponsen met behulp van <i>colormarkers</i> , tijdens het aanbieden van stimuli.  Met een total van 14 en 21 baselinesessies en 98 en 124 interventiesessies.	Registratie van de lachexpressieresponsen: • Een Computer met Windows 7 besturingssysteem, CPU, 2GHz klok, USB videocamera en een USB-kabel (verbinden van camera computer	4/80% <sup>1</sup>

kunnen selecteren.

zichtsvermogen, geen zelfredzaamheidsvaardigheden en afhankelijk van een rolstoel.

Voorafgaand aan de interventie vond een korte voorkeurscreening plaats.

Onvermeld: de duur van het onderzoek

*encolourmarkers*)

Registratie van de vocale responsen:  
• elektronisch apparaat bevestigd op de borstkast van de participanten, + keelmicrofoon.

<b>Lancioni et al. (2010)</b>	Het ontwikkelen en beoordelen van cameragestuurde microswitch technologie, gebruikmakend van <i>colormarks</i> in plaats van ondersteunende frames voor ooglid en mondrespons voor mensen met (Z)EVMB.	Kwalitatief, descriptieve studies (2 <i>casestudies</i> ), met ABABB design	N= 2M, (Z)EVMB X = respectievelijk 21 en 25 jaar.  IQ geschat als zeer ernstig (testen was niet mogelijk); encephalopathie, spastische tetraparese, groeiproblemen, ernstige scoliose, epilepsie en blindheid.	Studie 1: Het registreren van ooglid- (het openen van het ooglid) en mondrespons (mond openen) met behulp van voorkeursstimuli. 3 à 10 sessies per dag à 10 minuten ( totaal 115 sessies).  Study 2: Het registreren van een ooglidrespons (sluiten van het ooglid à 600 ms of langer) met behulp van voorkeursstimuli van de participant. 4-a10 sessies per dag à 10 minuten (totaal 123 sessies).  Voorkeursstimuli waren op aanraden van begeleiders en ouders en een korte stimulusvoorkeurscreening  Onvermeld: de duur van het onderzoek	Het registreren van de ooglid- en mondresponsen: • Een cameragestuurde microswitch technologie bestaande uit: computer (Windows© ), 2MGHz klok, USB-videocamera, <i>colormarks</i> en een speciaal softwareprogramma geschreven in Microsoft C#, dat gebruikt maakt van de Blob-analyse techniek om de positie van de kleurmerken te herkennen.	4/80% <sup>1</sup>
<b>Lancioni et al. (2013)</b>	Analysen van de effecten van de op microswitch gebaseerde programma's om mensen met (Z)EVMB te ondersteunen bij het oefenen van de voet-beenrespons.	Kwalitatief, descriptieve studie met ABABB-design + post-interventiecheck na 3 weken.	N= 3 (1M, 2V), (Z)EVMB; X= respectievelijk 37, 42 en 22 jaar;  IQ geschat op het niveau van ernstig/zeer ernstig (testen was niet mogelijk), congenitale encephalopathie, spastische tetraparese, epileptische aanvallen, blind/ minimaal zichtsvermogen, gehoorverlies.	Het ondersteunen van het oefenen met de voet- en beenresponsen bij mensen met (Z)EVMB door op microswitch gebaseerde programma's. Sessies à 10 minuten voor participant 1 en 3; 5 minuten voor participant 2 gedurende 2 tot 5 keer per dag, afhankelijk van de beschikbaarheid van de participanten.  In totaal vonden er 13 – 22 baselinesessies plaats, 330 – 359 interventiesessies en 20 post –interventionchecksessies.  Onvermeld: duur van het onderzoek.	Registreren van voet- en beenresponsen ▪ Computer met een speciaal softwaresysteem; ▪ Drie typen sensoren: optische sensoren (p1 en p3) en <i>touch-pressure</i> sensors (p2). ▪ Scoring door assistent onderzoeker (responsen ontstaan door aandrijving).	4/80% <sup>1</sup>
<b>Munde &amp; Vlaskamp (2019)</b>	Analysen van de activiteiten op dagbestedingscentra en de effecten hiervan op kwaliteit van leven van mensen met (Z)EVMB.	Kwalitatieve, descriptieve observatiestudie binnen vier dagbestedingscentra voor mensen met een verstandelijke beperking.	N=30 (14M, 16V), (Z)EVMB, X = 35;8 jaar (M, SD:9;3, range: 19 – 53)  Alle participanten voldeden aan de beschrijving van (Z)EVMB van Nakken en Vlaskamp (2007).	Activiteiten op dagbesteding beschrijven in een dagboek gedurende 1 week (binnen een periode van vier geselecteerde weken).  In totaal leverde dit per participant 7 uur x 5 werkdagen =35 uur of data op.	Activiteiten op de dagbesteding en het effect hiervan op de kwaliteit van leven: ▪ Dagboek, bestaande uit 2 delen: deel 1: voorbeeld planning van activiteiten (gecodeerd); Deel 2: gedetailleerde beschrijving van één activiteit uit de voorbeeld planning.	5/100% <sup>1</sup>
<b>Nijs, Vlaskamp &amp; Maes</b>	Analyse van de effecten van een interventie – waarbij	Kwalitatief, descriptieve, observatiestudie met een A-B-B'-C design +	N = 4 dyades (koppels), bestaande uit 1 begeleider en 2 participanten met (Z)EVMB.	Training aan begeleiders gericht op het vergroten van sociaal ondersteunend gedrag bij hun cliënten met (Z)EVMB, op het peer-gericht	Registreren van peer-gericht gedrag: • Observatie (video-opnames) van de activiteit met behulp van twee	5/100% <sup>1</sup>

(2018)	de begeleiders een training krijgen zodat zij hun cliënten meer sociaal ondersteunend gedrag kunnen bijbrengen – op het peer-gerichte gedrag bij mensen met (Z)EVMB.	Follow-up na 16 weken.	Participanten met (Z)EMVB, : N= 8 (4M, 4V); X = 15;4 jaar (M, R=5;11 – 37;8)  Begeleiders: N= 4V. X= 39,8 (M)	gedrag van de participanten met (Z)EVMB.  De onderzoeksperiode duurde 10 weken, met een follow-up meting in week 16. In week 3 en in 10 vonden de interventiesessies plaats.  Onvermeld: het aantal sessies.	videocamera's. <ul style="list-style-type: none"> <li>• Scoren van het doelgedrag door middel van <i>The Observer XT 10,5</i>-software.</li> <li>• Een vragenlijst ingevuld door de begeleider, na iedere activiteit.</li> </ul>		
Shih & Shih (2010)	Onderzoeken of twee jeugdigen met (Z)EVMB in staat zijn met duim-por-vaardigheid door middel van draadloze trackball-muizen (op basis van een muisbesturingssysteem) omgevingssimulatie te controleren.	Kwalitatieve descriptieve studie met ABAB-design + post-interventiecheck na 2 maanden.	X= 2 (1M, 1V), (Z)EVMB X = respectievelijk 12 en 10 jaar.  P1: ernstige verstandelijke beperking, in een rolstoel door spasmen, scoliose, en voetafwijkingen. P2: ernstige verstandelijke beperking, congenitale cerebropatie, spastische tetraparese.	Het activeren van de favoriete stimulatie (video of muziek aangeleverd door de ouders van de participanten), door met een duim-por-vaardigheid de trackball-muis te bewegen.  In totaal 27 baselinesessies, 105 interventiesessies en 18 post-interventiechecksessies à 10 minuten.  Onvermeld: duur van het onderzoek.	De reponses (het bewegen van trackball-muis door middel van duim-por-vaardigheid): <ul style="list-style-type: none"> <li>• Automatische geregistratie door de <i>Eee Box control Systeem</i>, een mini host, met besturingssysteem <i>Windows XP</i>, dat is verbonden met de TV met de stimulatie en draadloos met de Trackball-muis.</li> </ul>	4/80% <sup>1</sup>	
Shih et al. (2009)	Onderzoeken of twee mensen met (Z)EVMB instaat zijn om met hulp van computermuis en een muisbesturingssysteem door duim-por-vermogen ( <i>tumb poke ability</i> ) omgevingsprikkels te controleren.	Kwalitatief, descriptieve studie met ABAB-design + post-interventiecheck na 2 maanden na.	N= 2M, (Z)EVMB; X= respectievelijk 15;9 en 20;3 jaar ;  P1: prematuur geboren, crebropathie, spastische tetraparese, epilepsie, niet in staat te praten.  P2: Aicardi-syndroom, epilepsie, generaliseerde psychomotorische ontwikkelingsachterstand, niet in staat te praten en perioden van slaperigheid.	Het hanteren van een computermuis en muisbesturingssysteem door middel van duim-por-vaardigheid, zodat de participanten met (Z)EVMB omgevingsstimuli kunnen controleren.  3 tot 5 sessies à 10 muniten per dag. Met 21 baselinesessies, 85 intereventiesessies en 18 post-interventiechecksessies.  Onvermeld: de duur van het onderzoek.	Het registreren van de responsen: <ul style="list-style-type: none"> <li>▪ Draadloos controle stysteem: Eee Box mini computer (dit is een mini host, met een ingebouwd <i>Microsoft Windows XP Home Edition</i> besturingssysteem, dat verbonden is met de draadloze computermuizen.</li> </ul>	4/80% <sup>1</sup>	
<i>Gemixte methoden [kwalitatief en kwantatief]</i>							
Benford (2017)	Onderzoeken of een op switch aangedreven mobiliteitstraining kan dienen als leerinstrument voor mensen met (Z)EVMB.	Case-studie met kwantitatieve en kwalitatieve meetinstrumenten (gemixte methoden).	N = 1M, (Z)EVMB X= respectievelijk 23 jaar  Zeer ernstige verstandelijke beperking, cerebrale parese, epilepsie, dystonie in bovenbenen.	Het leren van oorzaak-gevolg, tijdens erhothérapie sessies gericht op mobiliteitstraining aan de hand van de 'Drive to learn'-theorie, door het zelfstandig leren besturen van de rolstoel door middel van 3 microswitchen.  Eerste 10 weken: 1 sessie per week à 30-45 minuten; 10 – 15 weken: 2 sessies per week à 30-45 minuten; Laatste twee sessies: toevoeging extra switch. De onderzoeksperiode omvatte 23 weken	Voortgang van de mobiliteitstraining (aandacht Activiteit, beweging; Begrip van het gebruik van de switches; expressie en emoties; interactie en communicatie): <ul style="list-style-type: none"> <li>• ALP- tool</li> <li>• GAS</li> <li>• Aantekeningen bij de GAS-score door de therapeut (observatie).</li> </ul>	5/100 <sup>1</sup>	

(inclusief vakanties) met een totaal van 31 sessies.

<b>Young et al. (2011)</b>	Door middel van triangulatie van data, de algemene effectiviteit van MSST voor jeugdigen met (Z)EMB bepalen.	Kwalitatieve/kwantitatieve observatiestudie (gemixte methoden) van 8 dyades (jeugdige met (Z)EVMB en <i>storyteller</i> ).	N = 8 Dyades Jeugdigen met (Z)EVMB N= 8 (5M, 3V) X = R: 4 – 19  Storytellers: N= 8 (5 moeders, 2 docenten, 1 therapeut).	De gemaakte MSST-boeken (over gevoelige onderwerpen) voorlezen, minimaal 8 keer, met een gemiddelde duur van 6 minuten. Van leessessie 1, 4 en 8 werden video-opnames gemaakt.	Algemene effectiviteit van MSST: <ul style="list-style-type: none"><li>▪ Observaties (video-opnames)</li><li>▪ <i>Observer® Video-Pro software</i> programma, om de gedragingen te coderen (uitgevoerd door de medewerker van PAMIS);</li><li>▪ Semi-gestructureerde interviews met ouders en professionals over hun ervaring met MSST.</li></ul>	4/80% <sup>1</sup>
----------------------------	--	--	--	--	---	--------------------

<sup>1</sup>Bepaling MMAT-Scores is terug te vinden in Bijlage A, tabel A1: MMAT-score geïnccludeerde studies.

N= aantal participanten; X= leeftijd; R = range; M= gemiddelde [*Mean*]; SD = Standaard Deviatie; M = Man; V= Vrouw; RCT = Randomized Control Trail; NRCS = Non-Randomised Control Study; (Z)EVMB= (Zeer) Ernstige Verstandelijke Meervoudige beperking; A= baseline; B= interventie; C= Follow-up/Post-interventiecheck; BAS= *Behavioral Appraisal Scales*; AOL= *Alertness Observation list*; BMI= *Body Mass Index*; MAS= *Modified Ashworth Scale*; QOL-PMD= *Quality Of Life-PMD*; MSST=*Multi-sensory storytelling*; HQC = *High –Quality Communication*; IPP = *Inventory for tuning activities and situations to the abilities and preferences of children with profound intellectual and multiple disabilities*; ALP-tool = *Assessment of Learning Powered Mobility- tool*; GAS = *Goal Attachment Scales*.

### *3.4 / Karakteristieken en kwaliteit van de onderzoeksdesigns*

#### *3.4.1 | Type onderzoeksdesigns*

De onderzoeksdesigns van de studies waren divers, waarbij de meerderheid (n=15, 60%) kwantitatief, descriptieve studies waren. De overige studies betroffen gerandomiseerde (n=1, 4%), niet-gerandomiseerde controle studies [NRCS] (n=6, 24%), gemixte methoden (zowel kwantitatief als kwalitatief) (n=2, 8%) en een kwalitatieve studie (4%).

Bij 16 studies (64%) was sprake van één of meerdere baselinecondities en interventiecondities. Bij 5 (20%) studies is enkel met een interventiefase gehanteerd.

Bij 5 studies (20%) is er sprake van een controlegroep. Dit is het geval bij 1 RCT-studie, 3 NRCS-studies en 1 kwantitatief, descriptieve studie.

#### *3.4.2 | Aantal sessies, duur van de sessies, duur van het onderzoek en follow-ups*

In 21 studies (84%) wordt het aantal interventiesessies beschreven, die varieert van 1 sessie tot 689 sessies (interventiesessies van 3 participanten), met een gemiddelde van 93 sessies.

In 18 studies (72%) wordt de duur van de sessies beschreven, die varieert van 1 minuut tot een hele dag (7 uur/420 minuten). Het meest voorkomende is een sessieduur van 10 minuten (n= 6, 24%).

In 10 studies (40%) wordt de duur van het onderzoek beschreven, variërend van 4 tot 40 weken. De gemiddelde onderzoeksduur bedroeg 15,3 weken. Vanwege de grote variatie onder het beperkt aantal studies is geen modus aan te wijzen.

Bij 10 studies (40%) is sprake van een follow-upmeting, variërend van 1 week tot 3 maanden na de laatste interventiefase. In 5 van deze studies werd het aantal sessies tijdens de follow-up beschreven. Het aantal follow-upsessies varieert van 12 tot 20 sessies, met een gemiddelde van 17 sessies.

#### *3.4.3 | MMAT-score*

Bij 7 studies (28%) is sprake van een maximale MMAT-score van 5/100% (zie tabel A.1 (bijlage A)). De overige studies (n=18, 72%) hebben een MMAT-score van 4/80%.

De kwalitatieve studie en de RCT-studie behaalden de maximale MMAT-score van 5/100%. Bij de NRCS-studies (n=6, 24%), behaalden 2 studies een score van 5/100%, de andere 4 studies behaalden een MMAT-score van 4/80% (zie tabel 2 en tabel A.1 (bijlage A)).

Van de 15 kwantitatief, descriptieve studies, behaalden 2 studies een MMAT-score van 5/100%. De andere 13 studies (52%) behaalden een MMAT-score van 4/80%.

Beide studies met een gemixte methoden-design hebben een MMAT-score van 5/100%, gebaseerd op de criteria van de gemixte methoden.

### 3.5 / Karakteristieken gehanteerde meetinstrumenten

Voor de karakteristieken van de meetinstrumenten is gekeken voor welke effectmaat welk meetinstrument is gebruikt. In tabel 3 is dit systematisch weergegeven.

**Tabel 3**

*Gehanteerde meetinstrumenten*

<b>Effectmaat (variabele)</b>	<b>Meetinstrument</b>	<b>Auteur(s)</b>
<b>Lichamelijke effecten</b>	Sensoren	Blain-Moraes et al. 2013 Dagache et al. 2019
	Diagnostische vraag en schaallijsten	Bossink et al. 2017
	Medische hulpmiddelen	Bossink et al. 2017
	Observatie en scores door een onderzoeker	Foreman et al. 2014
<b>Gedrag</b> <i>(sociaal-, peer-gericht en disruptief)</i>	Observatie aan de hand van video-opnames + een geoperationaliseerde gedragslijst	Fava & Strauss, 2010
	Observatie aan de hand van video-opnames + scores door onderzoeker	Samuel et al. 2008 Nijs et al. 2018
	Enquête ingevuld door begeleiders	Nijs et al. 2018
<b>Lichamelijke responsen</b>	Observatie en scores door een onderzoeker	Flemming et al. 2010, Browder et al. 2009, Lancioni et al. 2008a Benford, 2017
	Diagnostische vraag- en schaallijsten [ALP, GAS]	Benford, 2017
	Sensoren en microswitchtechnologie	Lancioni et al. 2008b Lancioni et al. 2013 Lancioni et al. 2008a Lancioni et al. 2011 Lancioni et al. 2010 Shih et al. 2009 Shih & Shih, 2010
<b>Aandacht op activiteit</b>	Observatie aan de hand van video-opnames + scores door onderzoeker	Ten Burg et al. 2016
	Observaties aan de hand van video-opnames en microswitch technologie	Dutt et al. 2014
<b>Kennis en vaardigheden begeleiders</b>	Observatie aan de hand van een checklist	Foreman et al. 2014
<b>Communicatieve vaardigheden</b>	Observatie aan de hand van video-opnames + scores door onderzoeker	Samuel et al. 2008 Bonnike et al. 2018
	Enquête ingevuld door begeleiders	Samuel et al. 2008
<b>Interactie tussen participant met (Z)EVMB en begeleider/ouder</b>	Directe observatie en scores door onderzoeker	Samuel et al. 2008
	Observatie aan de hand van video-opnames en transcriberen	Damen et al. 2014
	Semi-gestructureerde interviews	Blain-Moraes et al. 2013
<b>Inhoud, ontwikkeling en gebruik</b>	Observatie aan de hand van video-opnames en een	Ten Burg et al. 2012



<b>interventie</b>	<b>guideline</b>	
<b>Algemene effectiviteit van de interventie voor de doelgroep</b>	Follow-up enquête door begeleider	Browder et al. 2011
	Observaties aan de hand van een checklist	Browder et al. 2009
	Observaties aan de hand van video-opnames en scoring met behulp van een scoringssoftware.	Young et al. 2011
	Semi-gestructureerd interviews	Young et al. 2011
<b>Effecten op kwaliteit van leven</b>	Observatie en scoring door begeleider a.d.v dagboek	Munde & Vlaskamp, 2019

### 3.5.1 | Sensoren en micro-switchtechnologie

Sensoren en microswitchtechnologie is in 12 studies (48%) gebruikt als meetinstrument. Deze meetinstrumenten worden gebruikt bij het meten van lichamelijke effecten en responsen.

Blain-Moraes et al. (2013) hebben lichamelijke effecten voor biomusic geregistreerd met behulp van sensoren, bevestigd op de vingers van de participant. Dagache et al. (2019) heeft de invloed van tandemskiën op snelheid, hartslag en houding gemeten met 5 sensoren, bevestigd op verschillende delen van het lichaam van de participanten.

Bij alle studies van Lancioni et al (lancioni et al. 2008a; lancioni et al. 2008b; lancioni et al. 2010; lancioni et al. 2011; lancioni et al. 2013) en de studies van Shih et al. (2009) en Shih en Shih (2010), waarbij microswitchtechnologie onderdeel uitmaakt van de interventie, zijn lichamelijke responsen automatisch geregistreerd door microswitchtechnologie, bestaande uit een computer met een Windows©-besturingsstysteem en speciale software verbonden met de microswitch.

Shih en Shih (2010) beschrijven dat microswitches en sensoren gevoelige detectoren zijn, die accuraat bewegingen kunnen detecteren en registreren. Echter ontbreekt verdere informatie over de specifieke kwaliteit van de sensoren en microswitchtechnologie gebruikt in de studies.

### 3.5.2 | Observaties

In 15 studies (60%) is gebruik gemaakt van observaties, voor het meten van vrijwel alle effectmaten (zie tabel 3). Bij alle 15 studies is aan hand van de observaties het doelgedrag gescoord. In 8 studies vonden de observaties plaats met behulp van video-opnames. In 7 studies werd er direct geobserveerd en gescoord. In 5 studies werd gescoord aan de hand van een vooropgestelde gedragslijst of een checklist, in 8 studies werd er door de onderzoekers geteld, waarbij in 2 studies met behulp van observatie-software, in 1 studie aan de hand van transcriberen. In de studies van Dutt et al. (2014) en Lancioni et al. (2008a) werden de effectmaten naast observaties (video-opnames), met sensoren en microswitchtechnologie gemeten.

In de studies ontbreekt specifieke informatie over de observaties, waardoor geen uitspraken over de kwaliteit te doen zijn.

### 3.5.3 / Diagnostische vraag- en schaallijsten

In 2 studies (8%) is gebruikt van diagnostische vraag- en schaallijsten. Door Bossink et al. (2017) is gebruik gemaakt van de *Behavioral Appraisal Scales* [BAS] voor de functionele vaardigheden; *Alertness Observation list* voor alertheid; de lichaamssamenstelling door middel van de *Body Mass Index* [BMI]; spierkracht met behulp van de *Modified Ashworth Scale* [MAS]; en de kwaliteit van leven is in kaart gebracht aan de hand van de *Quality Of Life-PMD* [QOL-PMD]. Benford (2017) heeft de *Assessment of Learning Powered Mobility* [ALP] – tool gebruikt om de voortgang in kaart te brengen, waaronder lichamelijke responsen.

In de studies ontbreekt specifieke informatie over de diagnostische vraag- en schaallijsten, waardoor geen uitspraken over de kwaliteit hiervan te doen zijn.

### 3.5.4 / Medisch hulpmiddel

In de studie van Bossink et al. (2017) is naast de diagnostische vraag- en schaallijsten gebruik gemaakt van een vinger pulse oximeter om de cardiovasculaire fitheid en zuurstofverzadiging te meten. De kwaliteit van vinger pulse oximeters onderling verschilt sterk en specifieke informatie hierover ontbreekt in de studie. Grofweg mag er vanuit worden gegaan dat een medisch hulpmiddel meet wat het behoort te meten en betrouwbare en valide data oplevert.

### 3.5.5 / Enquêtes

In 3 studies (12%) is gebruik gemaakt van een enquête als meetinstrument. Nijs, Vlaskamp en Maes (2018) hebben peer-gerichtgedrag, naast observaties, gemeten door begeleiders van de participanten met (Z)EVMB na iedere activiteit een enquête laten invullen. Samuel et al. (2008) gebruikten voor het in kaart brengen van communicatieve vaardigheden, naast een observaties, enquête ingevuld door begeleiders. Browder et al (2009) de hebben algemene effectiviteit van *Shared stories* in het klaslokaal gemeten door de docent als follow-upmeting een enquête in te laten vullen over effecten van de interventie in het klaslokaal.

In bovengenoemde studies ontbreekt een beschrijving van de vorm en inhoud van de enquêtes.

### 3.5.6 / *Semi-gestructureerde interviews*

In 2 studies (8%) is gebruik gemaakt van semi-gestructureerde interviews. Blain-Moraes et al. (2013) hebben aan de hand van semi-gestructureerde interviews bij begeleiders en verzorgers de interactie tussen mensen met (Z)EVMB en hun begeleiders en verzorgers onder invloed van *biomusic* in kaart gebracht. Young et al. (2011) hebben naast observaties, door middel van semi-gestructureerde interviews, de effectiviteit van MSST voor jeudigen met (Z)EVMB in kaart gebracht.

In beide studies wordt weinig verteld over de inhoud en de verzamelde data van de semi-gestructureerde interviews. Wel wordt in beide onderzoeken aangegeven hoe de data is geanalyseerd. Blain-Moraes et al. (2013) hebben de data getranscribeerd met behulp van kwalitatieve onderzoekssoftware. De transcribatie is uitgevoerd door verschillende leden van het onderzoeksteam. Young et al. (2011) hebben de data gecodeerd volgens de thematische analyse. Vanwege de beperkte beschrijving van de semi-gestructureerde interviews, zijn geen uitspraken te doen over de kwaliteit.

## Hoofdstuk 4| **Conclusie & Discussie**

### *4.1./ Belangrijkste bevindingen*

Het doel deze systematische literatuurstudie was het analyseren van de kwaliteit van onderzoeksdesigns en de gebruikte methodologie in interventieonderzoeken naar mensen met (Z)EVMB. Uiteindelijk zijn 25 interventiestudies geanalyseerd. De gehanteerde onderzoeksdesigns varieerden: een meerderheid van de studies betrof kwantitatief discriptieve studies met 2 à 3 participanten tussen 4 en 70 jaar. Ook komen niet-gerandomiseerde controle studies relatief veel voor.

Het aantal interventie sessies liep uiteen van 1 tot 689 sessies, met een gemiddelde van 93 interventiesessies per participant per studie, veelal met een duur van 10 minuten. Van de 25 studies, was er bij 10 studies sprake van een follow-upmeting.

De kwaliteit van de onderzoeken was hoog, waarbij geen van de studies een kwaliteitsscore lager dan 4 punten had.

Bij de gehanteerde meetinstrumenten blijkt er sprake te zijn van een beperkte variatie: er werd vooral gebruik gemaakt van sensoren en/of microswitch technologie en observaties. In een aantal studies werden diagnostische vraag- en schaallijsten, enquêtes en semi-gestructureerde interviews ingezet om de effecten te analyseren. In een klein aantal studies werden er verschillende meetinstrumenten naast elkaar gebruikt om een effectmaat te meten, met name in studies waar gebruik werd gemaakt van observaties.

Sensoren en microswitchtechnologie werden voornamelijk ingezet voor het in kaartbrengen van lichamelijke effecten en responsen. Observaties werden voor vrijwel alle effectmaten ingezet, zoals voor het meten van lichamelijke effecten en responsen, aandacht op activiteit, kennis en vaardigheden van begeleiders, sociaal-, disruptief- en peergericht-gedrag, communicatieve vaardigheden, de interactie tussen participant met (Z)EVMB en begeleider en de algemene effectiviteit van de interventie.

In vrijwel alle studies is er sprake van een summiere beschrijving van de meetinstrumenten, waardoor er nagenoeg geen uitspraken te doen zijn over de kwaliteit van de gebruikte meetinstrumenten.

Uit de studies kan geconcludeerd worden dat er interventieonderzoek naar mensen met (Z)EVMB plaatsvindt van hoge kwaliteit, waardoor er veel kennis wordt opgedaan en er *evidence based* interventies worden ontwikkeld. Uit de studies komt naar voren dat

interventieonderzoeken naar mensen met (Z)EVMB voornamelijk exploratief, beschrijvende onderzoeken zijn met een beperkte populatiegrootte. De onderzoeken worden echter kenmerkt door een hoge methodologische kwaliteit, met veel metingen, en in een aanzienlijk deel van de studies ook *follow-up*metingen. Ten slotte wordt aan de hand van de studies ook zichtbaar dat er in de studies met een beperkt arsenaal van meetinstrumenten wordt gewerkt, waarvan de kwaliteit niet geheel bekend is.

#### 4.2 | *Theoretische reflectie*

De afgelopen jaren is er sprake van een toename van onderzoeken, zowel nationaal als internationaal, naar mensen met (Z)EVMB (Van der Putten et al., 2015). Ook neemt het aantal publicaties hierover toe (Van der Putten en Grietens, 2014). Daarnaast is er sprake van toenemende kennis over de doelgroep (Van der Putten et al., 2017). En is er door de *International Association on the Scientific Study of persons with Intellectual and Developmental Disabilities* [IASSIDD] een platform voor discussie en kennisuitwisseling over onderzoek naar mensen met (Z)EVMB opgericht. Deze toename is ook zichtbaar in deze studie, waarin uit 212 beschikbare studies naar mensen met (Z)EVMB, 25 interventiestudies geïnccludeerd zijn. In tegenstelling tot eerdere bevindingen, waaruit bleek dat er beperkte aandacht was voor interventieonderzoeken bij mensen met (Z)EBMB en dat deze onderzoeken exploratief van aard zijn de en kwaliteit beperkt (Maes et al., 2021; Van der Putten et al.,2015; Maes et al.,2007), laat deze studie zien, dat hoewel de studies vaak inderdaad exploratief van aard zijn, de kwaliteit hoog is en veel interessante informatie opleveren. Dit houdt mogelijk verband met het feit dat alle studies peer-reviewed zijn en zijn gepubliceerd in wetenschappelijke artikelen. Maar mogelijk ook met bovenstaande initiatieven, zoals onder andere de oprichting van een platform voor discussie en kennisoverdracht door het IASSIDD.

Maes et al. (2007) beschreven een grote variatie in de onderzochte interventies, hetgeen overeenkomt met de bevindingen in deze studie. De meerderheid van de studies ging over een interventie met microswitch technologie, waarvan 3 studies gericht waren op het kunnen weergeven van voorkeur, 5 studies gericht waren op ‘bewegen’ en 1 studie gericht was op de houding van de participant met (Z)EVMB. Vier studies betroffen een mediërende interventie, 3 studies gingen over *Multi-sensory storytelling* [MSST] en 2 studies over *Shared Stories*. De overige 11 van de 25 interventiestudies richten zich op diverse andere onderwerpen, zoals snoezelruimtes, dagbestedingsactiviteiten en *biomusic*. Eveneens in lijn met de bevindingen

van Maes et al. (2007) laat deze studie zien dat er verschil is in de verschillende interventie strategieën bij de verschillende interventies. Zowel in deze studie als in de studie van Maes et al. (2007) worden bij interventies waar het gaat om het fysiek en emotioneel welzijn de interventies ingezet bij de participant met (Z)EVMB, en worden interventies gericht op interpersoonlijke relaties vaak in de vorm van mediërende interventies uitgevoerd. In tegenstelling tot de studie van Maes et al. (2007) laat deze studie zien dat ook interventies gericht op zelfbepaling vaak bij de participant met (Z)EVMB worden uitgevoerd, met behulp van sensoren en microswitchtechnologie. Hetgeen niet door Maes et al. (2007) beschreven is, maar wat wel naar voren komt in deze studie, is dat ook het verbeteren van communicatieve vaardigheden vaak via mediërende interventies wordt getracht te bereiken.

Maes et al. (2021) beschrijven het probleem van beperkte populatiegroottes als gevolg van beperkte recruteer-mogelijkheden en de beperkte prevalentiecijfers door de grote heterogeniteit in karakteristieken onder mensen met (Z)EVMB. De beperkte populatiegroottes, die uiteen lopen van 1 tot 76 participanten met (Z)EMVB en meestal 2 à 3 participanten, is in lijn met de bevindingen van Maes et al. (2007), die in hun onderzoek populatiegroottes van 1 tot 44 participanten met (Z)EVMB vonden, waarbij de populatiegrootte in 10 van de 16 studies minder dan 10 participanten betrof. Volgens Maes et al. (2007) zijn herhaalstudies met een grotere groep participanten noodzakelijk om de daadwerkelijke effectiviteit van interventies te kunnen bepalen. In deze studie lijkt de beperkte populatiegrootte veelal te worden gecompenseerd met veel metingen en in 10 studies met *follow-up*metingen. Dit laatste wordt ook aanbevolen door Bossink et al. (2017), die de uitvoerbaarheid van RCT's bij mensen met (Z)EVMB onderzochten. In de discussie wordt gesteld dat de beperkte *effectsizes* binnen een kleine populatiegroep, toch significant zijn, terwijl zij verwachten dat bij grotere populatiegroottes niet grotere *effectsizes* worden gevonden. Aangezien mensen met (Z)EVMB een zeer heterogene groep vormen en grote homogene groepen die nodig zijn voor RCT's moeilijk te realiseren zijn, zijn n=1-studies wellicht beter passende onderzoeksdesigns bij deze doelgroep dan RCT's met kleine heterogroepen, waarbij alle effecten worden weggemiddeld.

De problemen van uitval tijdens het onderzoek als gevolg van gezondheidsproblemen en zelfs vroegtijdig overlijden (Maes et al., 2021; Van Timmeren et al., 2017) zijn in de studies niet naar voren gekomen.

Hoewel niet specifiek in de studies beschreven, komt uit de huidige studie wel naar voren dat er sprake is van een beperkte variatie wat betreft meetinstrumenten. Zoals eerder beschreven is er voornamelijk gebruik gemaakt van sensoren, microswitchechnologie en observaties. En in mindere mate van diagnostische vraag- en schaallijsten, enquêtes en interviews. Daarnaast ontbreekt in de onderzochte studies veelal een inhoudelijke beschrijving en kwaliteit van de meetinstrumenten. Dit komt overeen met de bevindingen van Maes et al. (2021), die beschreven dat onderzoekers vaak kampen met de beperkte beschikbare specifieke meetinstrumenten voor deze doelgroep. Ook Wessels et al. (2021) vonden dat er veel verschillende soorten meetinstrumenten werden gebruikt in onderzoek naar mensen met (Z)EVMB, maar dat veel van deze meetinstrumenten niet specifiek ontwikkeld zijn voor mensen met (Z)EVMB. Het risico hiervan is dat die meetinstrument niet gevoelig zijn voor de complexiteit en samenhang tussen de beperkingen van deze doelgroep. Tevens toonden Wessels et al. (2021) dat de informatie over de kwaliteit van de meetinstrumenten vaak ontbreekt. Ook dit sluit aan bij de resultaten binnen de huidige studie.

Overeenkomstig met Wessels et al. (2021) en Adams en Oliver (2011), die aantoonde dat observaties vaak als meetinstrument wordt gebruikt in onderzoek naar mensen met (Z)EVMB, blijkt uit deze systematische literatuurstudie eveneens dat observaties vaak als meetinstrument worden ingezet. Volgens Wessels et al. (2021) hebben het gebruik van observaties in onderzoek naar mensen met (Z)EVMB zeker voordelen ten opzichte van andere meetinstrumenten, omdat observaties rekening houden met de karakteristieke en onconventionele manieren van communiceren van mensen met (Z)EVMB. Ondanks de populariteit van observaties als meetinstrument in onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB, bestaan er wel twijfels over de validiteit van verschillende observatiemethoden (Adams en Oliver, 2011) en kent het gebruik van observaties algemene nadelen (Munde et al., 2011). Zo zijn observaties tijdrovend en gebaseerd op het geven van een betekenis aan gedrag. De interpretaties van de observatoren kunnen door verschillende factoren worden beïnvloed, wat mogelijk ten koste gaat van de betrouwbaarheid van de observaties (Munde et al., 2011; Hiemstra, Vlaskamp en Wiersma, 2007). Volgens Vos et al. (2012) heeft het dan ook de voorkeur om in onderzoeken andere meetinstrumenten naast observaties in te gebruiken. In deze systematische literatuurstudie is in 5 studies, naast observaties, gebruikt gemaakt van óf enquêtes, semi-gestructureerde interviews óf microswitchechnologie om doelgedrag in kaart te brengen. Uit diverse onderzoeken blijkt dat ook bepaalde fysiologische signalen, zoals hartslag, lichaamstemperatuur en de duur van ademen, kunnen worden gebruikt bij het

detecteren van emoties bij mensen met (Z)EVMB en eventueel naast gedragsobservaties als meetinstrument kunnen worden gezet (Vos, de Cock, Petry, van den Noortgate en Maes, 2013; Vos et al., 2012). Ook kan het door Lyons et al. (2017) onderzochte ‘*Triangulated Proxy Reporting*’ worden ingezet, waarbij twee bekende communicatiepartners van de persoon met (Z)EVMB, apart van elkaar, worden ingezet om het geobserveerde gedrag van de persoon met (Z)EVMB te vertalen voor de onderzoeker.

#### 4.3 | *Methodologische reflectie*

Ondanks het feit dat dit onderzoek veel informatie heeft opgeleverd over de kwaliteit van interventieonderzoeken naar mensen met (Z)EVMB en de gehanteerde meetinstrumenten daarin, kent dit onderzoek ook beperkingen. Ten eerste is op basis van de artikelen van Maes et al. (2007) en Vlaskamp en Nakken (2008) gekozen alleen studies gepubliceerd vanaf 2008 te includeren. Het voordeel hiervan is, dat alleen de meest recente en actuele kennis wordt gedeeld. Het nadeel van deze keuze is dat wellicht ‘oudere’ relevante kennis niet in het onderzoek wordt meegenomen. Zo was aan de hand van de bevindingen van Maes et al. (2021) en Van der Putten et al. (2015) die beschreven dat de kwaliteit van interventieonderzoeken bij mensen met (Z)EVMB vaak gering is, de verwachting dat de kwaliteit van de geïncludeerde interventieonderzoeken in deze studie eveneens erg gering zou zijn. Echter laat de huidige studie zien dat de interventie-onderzoeken bij mensen met (Z)EVMB vaak van hoge kwaliteit zijn. Mogelijk heeft deze selectiekeuze als gevolg dat de interventieonderzoeken met een beperkte kwaliteit niet in de studie zijn meegenomen evenals de oorzaken van de beperkte kwaliteit. Waardoor in deze studie niet verklaard kan worden, waarom de geïncludeerde interventiestudies in deze studie wel van hoge kwaliteit zijn.

Daarnaast was op basis van de bevindingen van Maes et al. (2021) en Maes et al. (2007) de verwachting dat als gevolg van de door hun beschreven problemen met het recruterende van participanten met (Z)EVMB en beperkte populatiegroottes, er bij de geïncludeerde studies in deze studie sprake zou zijn van voornamelijk kwalitatieve n=1-studies. Echter toont deze studie aan dat er voor sprake is van kwantitatieve, descriptieve studies, vaak met meerdere metingen. Wel is in de ingecludeerde studies vaak sprake van een beperkte populatiegrootte.

Een tweede beperking van dit onderzoek, is dat gezien de beschikbare tijd en een limiet aan het aantal woorden, ervoor is gekozen geen herhaal- of uitbreidingsstudies te includeren. Het



nadeel hiervan is mogelijk unieke kennis en kenmerken die uit deze herhaal- en uitbreidingsstudies niet mee worden genoemd in dit onderzoek. Hetgeen enerzijds jammer is, aangezien het een positief aspect is dat er herhaal- en uitbreidingsstudies worden uitgevoerd, omdat deze mogelijk waardevolle informatie kunnen opleveren en zelden worden uitgevoerd.

Een derde beperking is dat, door de beperkte tijd, bij het indelen van de studies in de MMAT-categorieën evenals het bepalen van de MMAT-score, geen herhaling is uitgevoerd door een mede-onderzoeker om de inter- en intrabeoordelaarsbetrouwbaarheid te bepalen. Dit maakt dat de uitkomsten minder betrouwbaar zijn en dienen daarom met enige voorzichtigheid te worden bekeken.

Een vierde en laatste beperking van dit onderzoek is, dat alleen artikelen uit een, door andere onderzoekers verzamelde, database met artikelen zijn geselecteerd. Een screening op artikelen uit diverse online databases, zoals Eric, PsycINFO en Medline had wellicht een groter aantal artikelen opgeleverd, waaruit de selectie aan de hand van de opgestelde in- en exclusiecriteria plaats had kunnen vinden. Mogelijk had dat nog andere studies opgeleverd. Omdat dit onderzoek echter onderdeel uit maakt van een onderzoeksanalyse naar de kwaliteit van de onderzoeksopzetten van studies over mensen met (Z)EVMB, behoorde dit niet tot de mogelijkheden.

#### *4.4 / Implicaties voor vervolgonderzoek*

Het huidige onderzoek heeft zich met name gericht op de karakteristieken van onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB en de kwaliteit hiervan. Het is positief dat er interventie-onderzoeken wordt uitgevoerd, met een grote kennisopbrengst en een hoge algemene kwaliteit. In deze studie zijn geen herhaal- en uitbreidingsstudies meegenomen, terwijl deze wel waardevolle informatie op kunnen leveren. Vervolgonderzoek zou zich specifiek op de waarde van herhaal- en uitbreidingsstudies kunnen richten. Volgens Maes et al. (2007) zijn herhaalstudies op grotere schaal nodig om definitieve conclusies te kunnen trekken over de effectiviteit van interventies bij mensen met (Z)EVMB. In vervolgonderzoek zou deze bewering onderzocht kunnen worden. Ook kan er bijvoorbeeld gekeken kunnen worden naar de kwaliteit van deze onderzoeken en welke extra informatie deze herhaal- en/of uitbreidingsstudies opleveren ten aanzien van eerder onderzoek dat is uitgevoerd.

De studie toonde aan dat in de meerderheid van de interventie-onderzoeken bij mensen met (Z)EVMB kwantitatief descriptieve onderzoeksdesigns met een 2 à 3 participanten wordt gehanteerd. Vervolgonderzoek zou zich ook kunnen richten op de geschiktheid van

kwantitatief, descriptieve onderzoeksdesigns in interventie-onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB, en de geschiktheid hiervan vergelijken met bijvoorbeeld RCT en n=1-studies.

Daarnaast liet deze studie zien dat de variatie in meetinstrumenten en de kwaliteit daarvan beperkt is. Vervolgonderzoek zou zich meer specifiek kunnen richten op de ontwikkeling van meetinstrumenten, omdat meetinstrumenten specifiek voor deze doelgroep, vaak niet beschikbaar zijn. (Wessels et al., 2021; Maes et al., 2021). In navolging van Vos et al. (2012) en Vos et al. (2013) zou vervolgonderzoek zich verder kunnen richten op het gebruiken van fysiologische signalen als meetinstrument, voor bijvoorbeeld gevoelens en kwaliteit van leven. Ook zou het inzetten van proxies in onderzoeken naar mensen met (Z)EVMB, zoals Lyons et al. (2017) hebben gedaan met het onderzoek naar TPR, verder kunnen worden onderzocht.

#### *4.5 / Implicaties voor de praktijk*

Aan de hand van deze systematische literatuurstudie kan worden gesteld dat er relatief veel kleine exploratieve onderzoeken met veel (*follow-up*-)metingen naar mensen met (Z)EVMB worden gedaan, die gekenmerkt worden door een hoge kwaliteit en die veel kennis en *evidence based* interventies opleveren. Hierbij valt te denken aan het gebruik van de verschillende microswitchtechnologieën, waarbij mensen met (Z)EVMB met een relatief beperkte vaardigheden meer eigen regie krijgen. Evenals de effectiviteit van MSST of *Shared Stories* en de invloed van dagbestedingsactiviteiten op de kwaliteit van leven. Van belang is dat deze wetenschappelijke kennis in de praktijk geïmplementeerd wordt, zodat mensen met (Z)EVMB ook daadwerkelijk profijt hebben van de kennis die opgedaan is. Deze implicatie kan gefaciliteerd worden door het organiseren van bijvoorbeeld congressen of scholingen. Een andere manier om de wetenschappelijke kennis te implementeren op de werkvloer is, door onderzoekers in de rol van orthopedagoog of psycholoog werkzaam te laten zijn op de werkvloer. Op die manier kan wetenschappelijke kennis meteen worden geïmplementeerd in de praktijk.

## Literatuurlijst

- Adam, D., & Oliver, C. (2011). The expression and assessment of emotions and internal states in individuals with severe or profound intellectual disabilities. *Clinical Psychology Review, 31*, 293–306. Doi: 10.1016/j.cpr.2011.01.003
- Benford, F. (2017). Use of powered mobility for a young adult with profound and multiple learning disabilities: a practice analysis. *British Journal of Occupational Therapy, 80*(8), 517–520. Doi: 10.1177/0308022617698169
- Blain-Moraes, S., Chesser, S., Kingsnorth, S., McKeever, P., & Biddiss, E. (2013). Biomusic: A Novel Technology for Revealing the Personhood of People with Profound Multiple Disabilities. *Augmentative and Alternative Communication, 29*(2), 159–173. Doi: 10.3109/07434618.2012.760648
- Bonnike, D. R., Douglas, K. H., & Stoner, J. B. (2018). Social Positioning: Increasing the Nonsymbolic and Symbolic Communication of Students with Complex Communication Needs. *International Journal of Special Education, 33*(1), 152–170. Opgevraagd van <https://files-eric-ed-gov.proxy-ub.rug.nl/fulltext/EJ1184081.pdf>.
- Bossink, L.W.M., Putten, A.A.J. van der, Waninge, A., & Vlaskamp, C. (2017). A power-assisted exercise intervention in people with profound intellectual and multiple disabilities living in a residential facility: a pilot randomized controlled trial. *Clinical Rehabilitation, 31*(9), 1168–1178. Doi: 10.1177/0269215516687347
- Browder, D.M., Mims, P.J., Spooner, F., Ahlgrim-DeLzell, L., & Lee, A. (2008). Teaching Elementary Students With Multiple Disabilities to Participate in Shared Stories. *Research & Practice for Persons with Severe Disabilities, 33*(1-2), 3–12. Doi: 10.2511/rpsd.33.1-2.3
- Browder, D.M., Lee, A., & Mims, P. (2011). Using Shared Stories and Individual Response Modes to Promote Comprehension and Engagement in Literacy for Students with Multiple, Severe Disabilities. *Education and Training in Autism and Developmental Disabilities, 46*(3), 339 – 351. Opgevraagd van <https://www-jstor-org.proxy-ub.rug.nl/>

- Burg, A. ten, Putten, A.A.J. van der, Penne, A., Maes, B., & Vlaskamp, C. (2012). Multi-Sensory Storytelling for Persons with Profound Intellectual and Multiple Disabilities: An Analysis of the Development, Content and Application in Practice. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 25, 350–359. Doi: 10.1111/j.1468-3148.2011.00671.x
- Burg, A. ten, Putten, A.A.J. van der, Penne, A., Maes, B., & Vlaskamp, C. (2016). Making a difference? A comparison between multi-sensory and regular storytelling for persons with profound intellectual and multiple disabilities. *Journal of Intellectual Disability Research*, 60(11), 1043–1053. Doi: 10.1111/jir.12260
- Damen, S., Janssen, M.J., Huisman, M., Ruijsenaars, W.A.J.J.M., & Schuengel, C. (2014). Stimulating Intersubjective Communication in an Adult with Deafblindness: A Single-Case Experiment. *Journal of Deaf Studies and Deaf Education*, 19(3), 366–384. Doi: 10.1093/deafed/enu006
- Degache, F., Bonjour, A., Michaud, D., Mondada, L., & Newman, C.J. (2019). The effects of tandem skiing on posture and heart rate in Children with profound intellectual and multiple disabilities. *Developmental Neurorehabilitation*, 22(4), 234–239. Doi: 10.1080/17518423.2018.1462268
- Dutt, A.S., Berg, W.K., Wacker, D.P., Ringdahl, J.E., Yang, L.-Y., Vinqvist, K.M., & Zama, M. (2014). The Effects of Skill Training on Preference for Children with Severe Intellectual and Physical Disabilities. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, 26(5), 585–601. Doi: 10.1007/s10882-014-9383-3
- Fava, L., & Strauss, K. (2010). Multi-sensory rooms: Comparing effects of the Snoezelen and the Stimulus Preference environment on the behavior of adults with profound mental retardation. *Research in Developmental Disabilities*, 31, 160–171. Doi: 10.1016/j.ridd.2009.09.006

- Fleming, C.V., Wheeler, G.M., Cannella-Malone, H.I., Basbagill, A.R., Chung, Y.-C., & Graham-Day, K. (2010). An evaluation of the use of eye gaze to measure preference of individuals with severe physical and developmental disabilities. *Developmental Neurorehabilitation*, 13(4), 266–275. Doi: 10.3109/17518421003705706
- Foreman, P., Arthur-Kelly, M., Bennett, D., Neilands, J., & Colyvas, K. (2014). Observed changes in the alertness and communicative involvement of students with multiple and severe disability following in-class mentor modeling for staff in segregated and general education classrooms. *Journal of Intellectual Disability Research*, 58(8), 704–720. Doi: 10.1111/jir.12066
- Hiemstra, S. J., Vlaskamp, C., & Wiersma, L. A. (2007). Individual focus in an activity centre: An observational study among persons with profound and multiple disabilities. *Education and Training in Developmental Disabilities*, 42(1), 14–23. Opgevraagd van <https://www.jstor.org/stable/23880135>
- Hong, Q.N, Fàbregues, S., Bartlett, G., Boardman, F., Cargo, M., Dagenais, P., Gagnon, M. P., Griffiths, F., Nicolau, B., O’Cathain, A., Rousseau, M.C., Vedel, I., & Pluye, P. (2018a). The Mixed Methods Appraisal Tool (MMAT) version 2018 for information professionals and researchers. *Education for Information*, 34(4), 285–291. Doi:10.3233/EFI-180221
- Hong, Q.N., Pluye, P., Fàbregues, S., Bartlett, G., Boardman, F., Cargo, M., Dagenais, P., Gagnon, M.P., Griffiths, F., Nicolau, B., O’Cathain, A., Rousseau, M.C., & Vedel, I. (2018b) Mixed Methods Appraisal Tool (MMAT) – Userguide, version 2018 [Worddocument]. Opgevraagd op 2 september 2021 van <http://mixedmethodsappraisaltoolpublic.pbworks.com/w/page/127425845/Download%20the%20MMAT>
- Hostyn, I., Daelman, M., Janssen, M. J., & Maes, B. (2010). Describing dialogue between persons with profound intellectual and multiple disabilities and direct support staff using the scale for dialogical meaning making. *Journal of Intellectual Disability Research*, 54(8), 679–690. Doi: 10.1111/j.1365-2788.2010.01292.x

- Houwen, S., Visser, L., Putten, A. van der & 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. Doi:10.1016/j.ridd.2016.01.012
- Keer, I. van, Colla, S., Leeuwen, K. van, Vlaskamp, C., Ceulemans, E., Hoppenbrouwers, K., Desoete, A., & Maes, B. (2017). Exploring parental behavior and child interactive engagement: A study on children with a significant cognitive and motor developmental delay. *Research in Developmental Disabilities*, 64, 131–142. Doi: 10.1016/j.ridd.2017.04.002
- Lancioni, G.E., Bellini, D., Oliva, D., Singh, N.N., O'Reilly, M.F., Lang, R., Didden, R., & Bosco, A. (2011). Persons with multiple disabilities select environmental stimuli through a smile response monitored via camera-based technology. *Developmental Neurorehabilitation*, 14(5), 267–273. Doi: 10.3109/17518423.2011.584605
- Lancioni, G.E., Bellini, D., Oliva, D., Singh, N. N., O'Reilly, M.F., & Sigafos, J. (2010). Camera-based microswitch technology for eyelid and mouth responses of persons with profound multiple disabilities: Two case studies. *Research in Developmental Disabilities*, 31, 1509–1514. Doi: 10.1016/j.ridd.2010.06.006
- Lancioni, G.E., O'Reilly, M.F., Singh, N.N., Sigafos, J., La Martire, M.L., & Oliva, D. (2008a). Helping a child with multiple disabilities endure a demanding physical posture through self-managed access to preferred stimuli. *Perceptual and Motor Skills*, 107, 288–292. Doi: 10.2466~PA~IS.107.1.288-2
- Lancioni, G.E., Singh, N.N., O'Reilly, M.F., Sigafos, J., Oliva, D., Campodinic, F., & Groeneweg, J. (2008b). A Man With Multiple Disabilities Using A Head-Turning Response to Reduce The Effects Of His Drooling. *Behavioral Interventions*, 23, 285 – 290. Doi: 10.1002/bin.265

- Lancioni, G.E., Singh, N.N., O'Reilly, M.F., Sigafoos, J., Alberti, G., Oliva, D., & Campodonico, F. (2013). Three non-ambulatory adults with multiple disabilities exercise foot-leg movements through microswitch-aided programs. *Research in Development Disabilities, 34*, 2838–2844. Doi: 10.1016/j.ridd.2013.05.045
- Landis, J. R., & Koch, G. G. (1977). The Measurement of Observer Agreement for Categorical Data. *Biometrics, 33*(1), 159–174. Doi: 10.2307/2529310
- Loon, D., van, Meulen, B.F. van der, & Minneart, A.E.M.G. (2015). *Effectonderzoek in de gedragswetenschappen: een introductie*. Antwerpen – Apeldoorn: Garant.
- Luijkx, J., Putten, A. A. J. van der, & Vlaskamp, C. (2017). Time use of parents raising children with severe or profound intellectual and multiple disabilities. *Child: Care, Health and Development, 43*(4), 518–526. Doi: 10.1111/cch.12446
- Lyons, G., de Bortoli, T., & Arthur-Kelly, M. (2017). Triangulated Proxy Reporting: a technique for improving how communication partners come to know people with severe cognitive impairment. *Disability and Rehabilitation, 39*(18), 1814–1820. Doi: 10.1080/09638288.2016.1211759
- Maes, B., Nijs, S., Vandesande, S., Van keer, I., Arthur-Kelly, M., Dind, J., Goldbart, J., Petitpierre, G., & Van der Putten, A.A.J. (2021). Looking back, looking forward: Methodological challenges and future directions in research on persons with profound intellectual and multiple disabilities. *Journal Applied Research Intellectual Disabilities, 34*, 250–262. Doi: 10.1111/jar.12803
- Maes, B. (2014). Activiteit en participatie van mensen met ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen: Stand van zaken en toekomstperspectieven. In B.F. van der Meulen, A.A.J. van der Putten, P. Poppes & K. Reynders (red.), *Sporen van een reiziger: opvoeding en ondersteuning van mensen met (zeer) ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen nader onderzocht* (51–64). Antwerpen – Apeldoorn: Garant.

- Maes, B., Lambrechts, G., Hostyn, I. & Petry, K. (2007). Quality-enhancing interventions for people with profound intellectual and multiple disabilities: A review of the empirical research literature. *Journal of Intellectual & Developmental Disability*, 32(3) 163–178. Doi: 10.1080/13668250701549427
- Moher, D., Liberati, A., Tetzlaff, J., Altman, D.G., & The Prisma Group. (2009). Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: the PRISMA statement. *British Medical Journal*, 339(7716), 332–336. Doi: 10.1136/bmj.b2535
- Munde, V.S., & Vlaskamp, C. (2019). Individuals with Profound Intellectual and Multiple Disabilities at Work?! Activities in Special Day Service Centers in Germany. *Journal of Policy and Practice in Intellectual Disabilities*, 16(3), 232–238. Doi: 10.1111/jppi.12289
- Munde, V.S., Vlaskamp, C., Ruijssenaars, W.A.J.J.M., & Nakken, H. (2011). Determining Alertness in Individuals with Profound Intellectual and Multiple Disabilities: The Reliability of an Observation List. *Education and Training in Autism and Developmental Disabilities*, 46(1), 116–123. Opgevraagd van <http://www.jstor.org/stable/23880035>
- Nakken, H., & Vlaskamp, C. (2007). A Need for a Taxonomy for Profound Intellectual and Multiple Disabilities. *Journal of Policy and Practice in Intellectual Disabilities*, 4(2), 83–87. Doi:10.1111/j.1741-1130.2007.00104.x
- Nijs, S., Vlaskamp, C., & Maes, B. (2018). Promoting Social Scaffolding Behaviors in Staff Members and Peer-Directed Behaviors Among Persons With Profound Intellectual and Multiple Disabilities: In Intervention Study, *Journal of Policy and Practice in Intellectual Disabilities*, 15(2), 124–135. Doi: 10.1111/jppi.12251
- Putten, A.A.J. van der & Grietens, H.W.E. (2014). Het land binnen de grenzen: onderzoek naar mensen met zeer ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen. In B.F. van der Meulen, A.A.J. van der Putten, P. Poppes & K. Reynders (red.), *Sporen van een reiziger: opvoeding en ondersteuning van mensen met (zeer) ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen nader onderzocht* (51–64). Antwerpen – Apeldoorn: Garant.



- Putten, A.A.J. van der, Haar, A. ter, Maes, B., & Vlaskamp, C. (2015). Duizendpoten: Een literatuuronderzoek naar beschikbare kennis voor zorgprofessionals ten behoeve van de ondersteuning van mensen met (zeer) ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen. *NTZ*, 3, 151–195.
- Putten, A.A.J. van der, Vlaskamp, C., Luijkx, J., & Poppes, P. (2017). Kinderen en volwassenen met zeer ernstige verstandelijke en meervoudige beperkingen: tijd voor een nieuw perspectief. [Position Paper Research Centre EMB]. Opgevraagd van <https://www.rug.nl/gmw/pedagogical-and-educationalsciences/research/researchpmd/Mensen-met-zeer-ernstige-verstandelijke-en-meervoudige-beperkingen.pdf>
- Samuel, J., Nind, M., Volans, A., & Scriven, I. (2008). An evaluation of Intensive Interaction in community living settings for adults with profound intellectual disabilities. *Journal of Intellectual Disabilities*, 12(2), 111–126. Doi: 10.1177/1744629508090983
- Shih, C.-H., & Shih, C.-T. (2010). Assisting Two Children with Multiple Disabilities and Minimal Motor Skills Control Environmental Stimuli with Thumb Poke Through a Trackball. *Behavioural and Cognitive Psychotherapy*, 38, 211–219. Doi: 10.1017/S1352465809990683
- Shih, C.-H., Shih, C.-T., Lin, K.T., & Chiang, M.S. (2009). Assisting people with multiple disabilities and minimal motor behavior to control environmental stimulation trough a mouse wheel. *Research in Development Disabilities*, 30, 1413–1419. Doi: 10.1016/j.ridd.2009.07.001
- Timmeren, E.A. van, Schans, C.P. Van der, Putten, A.A.J. Van der, Krijnen, W.P., Steenbergen, H.A., van Schrojenstein Lantman-de Valk, H.M.J., & Waninge, A. (2017). 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), 30–49. Doi: 10.1111/jir.12296

- Veen, G. van der. (2021). *De invloed van de fysieke intramurale woonomgeving op kwaliteit van bestaan voor personen met een (Zeer) Ernstige Verstandelijke en Meervoudige beperking: Een overzicht van de literatuur* (Masterthese Rijksuniversiteit Groningen) [ongepubliceerd].
- Vlaskamp, C., & Cuppen-Fonteine, H. (2007). Reliability of assessing the sensory perception of children with profound intellectual and multiple disabilities: A case study. *Child: Care, Health and Development*, 33(5), 547–551. Doi:10.1111/j.1365-2214.2007.00776.x
- Vlaskamp, C., & Nakken, H. (2008). Therapeutic interventions in the Netherlands and Belgium in support of people with profound intellectual and multiple disabilities. *Education and Training in Developmental Disabilities*, 43(3), 334–341. Opgevraagd van [https://www-jstor-org.proxy-ub.rug.nl/stable/23879795?seq=1#metadata\\_info\\_tab\\_contents](https://www-jstor-org.proxy-ub.rug.nl/stable/23879795?seq=1#metadata_info_tab_contents)
- Vos, P., Cock, P. de, Petry, K., Noortgate, W. van den, & Maes, B. (2013). See me, feel me. Using physiology to validate behavioural observations of emotions of people with severe or profound intellectual disability. *Journal of Intellectual Disability Research*, 57(5), 452–461. Doi: 10.1111/jir.12030
- Vos, P., Cock, P. de, Munde, V., Petry, K., Noortgate, W. van den, & Maes, B. (2012). The tell-tale: What do heart rate; skin temperature and skin conductance reveal about emotions of people with severe and profound intellectual disabilities? *Research in Developmental Disabilities*, 33, 1117–1127. doi:10.1016/j.ridd.2012.02.006
- Vugteveen, J., Putten, A.A.J. van der, & Vlaskamp, C. (2014). *Inventarisatieonderzoek personen met ernstige meervoudige beperkingen: prevalentie en karakteristieken*. Groningen: Stichting Kindstudies.
- Wessels, M. D., Putten, A. A. J. van der, & Paap, M. C. (2021). Inventory of assessment practices in people with profound intellectual and multiple disabilities in three European countries. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 34, 1521 – 1537. Doi: 10.1111/jar.12896

Young, H., Fenwick, M., Lambe, L., & Hogg, J. (2011). Multi-sensory storytelling as an aid to assisting people with profound intellectual disabilities to cope with sensitive issues: a multiple research methods analysis of engagement and outcomes. *European Journal of Special Needs Education*, 26(2), 127–142. Doi: 10.1080/08856257.2011.563603

## Bijlagen

# Bijlage A | Tabel MMAT-score geïncludeerde studies

**Tabel A.1**

*MMAT-score geïncludeerde studies*

Studies	Algemene vragen*		Kwalitatief					Kwantitatief RCT*					Kwantitatief NRCS**					Kwantitatief Discriptief					Gemixte Methodes**					Score uit 5***	Kwaliteit percentage score
	S.1	S.2	1.1	1.2	1.3	1.4	1.5	2.1	2.2	2.3	2.4	2.5	3.1	3.2	3.3	3.4	3.5	4.1	4.2	4.3	4.4	4.5	5.1	5.2	5.3	5.4	5.5		
Blain-Moraes et al., 2013	1	1	1	1	1	1	1																					5	100%
Bossink et al. 2017	1	1						1	1	1	1	1																5	100%
Fava & Strauss, 2010	0	1											1	1	1	X	1											4	80%
Fleming et al., 2010	1	1											1	1	1	X	1											4	80%
Foreman et al., 2014	1	1											1	1	1	X	1											4	80%
Samuel et al., 2008	1	1											1	1	1	X	1											4	80%
Ten Burg et al. 2016	1	1											1	1	1	1	1											5	100%
Ten Burg et al. 2012	1	1											1	1	1	1	1											5	100%
Bonnike, Douglas & Stoner, 2018	1	1																0	1	1	1	1						4	100%
Browder et al. 2009	1	1																1	1	1	1	X						4	80%
Browder, Lee & Mims, 2011	1	1																1	1	1	1	X						4	80%
Damen et al., 2014	1	1																0	1	1	1	1						4	80%
Degache et al. 2019	1	1																0	1	1	1	1						4	80%
Dutt et al., 2014	1	1																1	1	1	1	X						4	80%
Lancioni et al., 2008a	0	1																0	1	1	1	1						4	80%

Scoring vragen MMAT: (0 = nee; 1 = ja; x= kan niet worden beantwoorden, omdat dit niet de studie wordt vermeld; - niet van toepassing)\*\*\*\*\*

**Tabel gebaseerd op: Hong et al. (2018b) en Van der Veen (2021).**

Studies	Algemene vragen*		Kwalitatief					Kwantitatief RCT					Kwantitatief NRCS					Kwantitatief Discriptief					Gemixte Methodes**					Score uit 5***	Kwaliteit percentage score	
	S.1	S.2	1.1	1.2	1.3	1.4	1.5	2.1	2.2	2.3	2.4	2.5	3.1	3.2	3.3	3.4	3.5	4.1	4.2	4.3	4.4	4.5	5.1	5.2	5.3	5.4	5.5			
Lancioni et al., 2008b	0	1																0	1	1	1	1						4	80%	
Lancioni et al., 2010	0	1																0	1	1	1	1						4	80%	
Lancioni et al., 2011	0	1																0	1	1	1	1						4	80%	
Lancioni et al., 2013	0	1																0	1	1	1	1						4	80%	
Munde & Vlaskamp, 2019	1	1																1	1	1	1	1						5	100%	
Nijs et al. 2018	1	1																1	1	1	1	1						5	100%	
Shih & Shih, 2010	0	1																0	1	1	1	1						4	80%	
Shih et al, 2009	0	1																0	1	1	1	1						4	80%	
Benford, 2017	0	1	1	1	1	1	1											X	1	1	1	X	1	1	1	1	1	5	100%	
Young et al. 2010	0	1	1	1	1	1	1	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	0	1	1	1	1	1	1	1	1	X	1	4	80%

**Scoring vragen MMAT: (0 = nee; 1 = ja; x= kan niet worden beantwoorde, omdat dit niet de studie wordt vermeld; - niet van toepassing)\*\*\*\*\***

**Tabel gebaseerd op: Hong et al. (2021) en Van der Veen (2021).**

RCT= Randomized control trail/ gerandomiseerd, gecontroleerd onderzoek; NRCS = Non-Randomised Control study/ niet-gerandomiseerd, gecontroleerd onderzoek

\*De algemene vragen [S.1 en S.2] worden als randvoorwaarde gezien en niet meegenomen als waarde in de score.

\*\*Bij het scoren van de Mixed methods (kwalitatieve en kwantitatieve meetinstrumenten) telt alleen de score op de Mixed Methods-criteria mee voor de score.

\*\*\*S.1. zijn er heldere onderzoeksvragen? S.2. Kunnen de onderzoeksvragen met de verkregen data beantwoord worden? 1.1. Is de kwalitatieve benadering geschikt om de onderzoeksvraag te beantwoorden? 1.2. Zijn de kwalitatieve dataverzamelingmethoden geschikt om de onderzoeksvraag te beantwoorden? 1.3. Zijn de bevindingen voldoende afgeleid van de data? 1.4. Is de interpretatie van resultaten voldoende onderbouwd met data? 1.5. Is er samenhang tussen kwalitatieve databronnen, verzameling, analyse en interpretatie? 2.1. Wordt randomisatie op de juiste manier uitgevoerd? 2.2. Zijn de groepen vergelijkbaar bij baseline? 2.3. Zijn er volledige uitkomstgegevens? 2.4. Zijn uitkomstbeoordelaars geblindeerd voor de aangeboden interventie? 2.5. Hielden de deelnemers zich aan de toegewezen interventie? 3.1. Zijn de deelnemers representatief voor de doelgroep? 3.2. Zijn metingen geschikt voor zowel de uitkomst als de interventie (of blootstelling)? 3.3. Zijn er volledige uitkomstgegevens? 3.4. Wordt er rekening gehouden met de confounders in het ontwerp en de analyse? 3.5. Is de interventie tijdens de onderzoeksperiode uitgevoerd (of heeft de blootstelling plaatsgevonden) zoals bedoeld? 4.1. Is de steekproefstrategie relevant om de onderzoeksvraag te beantwoorden? 4.2. Is de steekproef representatief voor de doelgroep? 4.3. Kloppen de metingen? 4.4. Is het risico op non-responsbias laag? 4.5. Is de statistische analyse geschikt om de onderzoeksvraag te beantwoorden? 5.1. Is er een adequate reden voor het gebruik van een gemengde methoden design om de onderzoeksvraag te beantwoorden? 5.2. Zijn de verschillende onderdelen van het onderzoek effectief geïntegreerd om de onderzoeksvraag te beantwoorden? 5.3. Wordt de output van de integratie van kwalitatieve en kwantitatieve componenten adequaat geïnterpreteerd? 5.4. Worden verschillen en inconsistenties tussen kwantitatieve en kwalitatieve resultaten adequaat aangepakt? 5.5. Voldoen de verschillende onderdelen van het onderzoek aan de kwaliteitscriteria van elke traditie van de betrokken methoden (Hong et al., 2018)

