

# Het welbevinden van ouders en hun chronisch zieke kinderen

Masterthesis

G.E. Hofstede, S2898853

Rijksuniversiteit Groningen, Masteropleiding Orthopedagogiek,

Faculteit der Gedrags- en Maatschappijwetenschappen,

Eerste beoordelaar: prof. dr. A. (Anna) Lichtwarck-Aschoff

Tweede beoordelaar: dr. D.D. (Diana) Van Bergen

Eindversie 1, 24-05-2022

## **Samenvatting**

De afgelopen jaren is grote vooruitgang geboekt in de levensverwachting van kinderen met een chronische ziekte (Silva et al., 2019). Desondanks blijken deze kinderen toch regelmatig achter te lopen ten opzichte van leeftijdsgenoten. De wederkerige werking tussen het functioneren van kind en gezin maakt de samenhang van welbevinden van ouder en kind de focus van de studie. De rapportagediscrepantie tussen ouder en kind kan daarnaast een kader bieden voor deze samenhang. Deze onderzoeksvragen staan centraal: 1) Is er sprake van een verband tussen het welbevinden van de ouders en het welbevinden van het chronisch zieke kind? en 2) Is er sprake van overeenstemming over het welbevinden van het kind zoals gerapporteerd door de ouders (over het kind) en het kind (over zichzelf).

In de studie is gebruik gemaakt van een bestaande dataset van een longitudinale cohortstudie (Van der Vlist et al., 2021). De eerste onderzoeksvraag is beantwoord aan de hand van een non-parametrische correlatieve toets en de tweede aan de hand van een gepaarde t-toets. De volgende concepten kwamen aan de orde: de opvoedingsbelasting, moeheid en pijn die ouders ervaren in vergelijking met de kwaliteit van leven, moeheid en pijn die de kinderen ervaren.

Het is gebleken dat er wel degelijk sprake is van significante samenhang tussen de genoemde concepten. Daarnaast bleek er ook sprake van een rapportagediscrepantie tussen ouder en kind. Tegen de verwachting in bleken ouder en kind gemiddeld wel gelijkmatig te rapporteren over de moeheid van het kind.

De resultaten bevestigen het belang van een systeembenadering in de behandeling van het kind met een chronische ziekte. Daarnaast is een multi-informanten aanpak essentieel in de beoordeling van het welbevinden van ouder en kind om belemmeringen die deze gezinnen ervaren door de chronische ziekte te minimaliseren.

## **Abstract**

In recent years, great progress has been made in the life expectancy of children with a chronic disease (Silva et al., 2019). Nevertheless, these children regularly appear to fall behind compared to their peers. The reciprocal effect between the functioning of the child and its family makes the relationship of well-being of parent and child the focus of this study. The reporting discrepancy between parent and child can also provide a framework for this relationship. These research questions are central: 1) Is there a relationship between the well-being of parents and the well-being of their child with a chronic illness? and 2) Is there

agreement about the child's well-being as reported by the parents (about the child) and the child (about himself).

For this study an existing dataset from a longitudinal cohort study has been used (Van der Vlist et al., 2021). The first research question was answered by means of a non-parametric correlational test and the second by means of a paired t-test. The following concepts can be found in this study: parenting tax, fatigue and pain experienced by parents in relationship to the quality of life, fatigue and pain experienced by the children.

It has become apparent that there is indeed a significant correlation between the concepts mentioned. In addition, there was also a reporting discrepancy between parent and child. Contrary to expectations, parent and child did report equally on the child's fatigue.

The results confirm the importance of a systems approach in the treatment of the child with a chronic disease. In addition, a multi-informant approach is essential in assessing parent and child well-being to minimize the difficulties these families experience due to the chronic disease.

## Inhoudsopgave

<b>Inleiding</b> .....	<b>5</b>
1.1 <i>Achtergrond</i> .....	5
1.2 <i>Wederkerige relatie welbevinden ouders en kind</i> .....	6
1.3 <i>Rapportage discrepantie</i> .....	7
1.4 <i>Huidige studie</i> .....	8
<b>Method</b> .....	<b>10</b>
2.1 <i>Context van de studie</i> .....	10
2.2 <i>Participanten</i> .....	10
2.3 <i>Procedure</i> .....	11
2.4 <i>Instrumenten</i> .....	12
Welbevinden van ouders .....	13
Welbevinden van het kind .....	15
2.5 <i>Statistische analyses</i> .....	17
Vorbereidende analyses .....	17
Hoofdanalyses .....	17
<b>Resultaten</b> .....	<b>18</b>
3.1 <i>Beschrijvende analyses</i> .....	18
3.2 <i>Hoofdanalyses</i> .....	20
Verband welbevinden kind en ouder .....	20
Rapportagediscrepantie .....	22
<b>Discussie</b> .....	<b>23</b>
4.1 <i>Discussie resultaten</i> .....	23
4.2 <i>Sterke punten, limitaties en suggesties voor vervolgonderzoek</i> .....	24
4.3 <i>Conclusie</i> .....	26
<b>Literatuurlijst</b> .....	<b>28</b>

## Inleiding

### 1.1 Achtergrond

Uit onderzoek is gebleken dat maar liefst een kwart van de Nederlandse kinderen en jongeren tot 25 jaar een chronische aandoening heeft (Verwey-Jonker Instituut, 2019). De afgelopen jaren is grote vooruitgang geboekt in de levensverwachting van kinderen met een chronische of levensbedreigende aandoening (Perrin, Bloom & Gortmaker, 2007; Silva et al., 2019; Wise, 2007). Dit succes heeft echter ook geleid tot een toename aan adolescenten en volwassenen die dagelijks tegen de gevolgen van hun ziekte aanlopen. Voor een soepele transitie naar het volwassen leven is het voor kinderen essentieel de ontwikkelingsmijlpalen te bereiken. Echter blijkt dat kinderen met chronische ziekten daarin achterlopen ten opzichte van hun gezonde leeftijdsgenoten. Deze relatieve vertragingen binnen psychosociale domeinen kunnen weer leiden tot verslechterde kwaliteit van leven en een verslechterde positie op de arbeidsmarkt (Maurice-Stam, Nijhof, Monninkhof, Heymans & Grootenhuis, 2019).

Ondanks dat men vooruitgang boekt in de behandeling van chronische ziekten, lijken problemen vaak verder te gaan dan de aan de ziekte gerelateerde symptomen. Zo komen pijn en vermoeidheid veel voor bij kinderen met chronische ziekten, maar hebben deze niet altijd een biologische oorzaak (Crichton, Knight, Oakley, Babl, & Anderson, 2015; Nijhof, Van de Putte, Wulffraat & Nijhof, 2015). In de definitie van de WHO in 1948 werd al benoemd dat gezondheid niet alleen de afwezigheid is van de ziekte, maar meer een toestand van volledig fysiek, mentaal en sociaal welbevinden (UMCG, 2017). Volgens het Nederlands Jeugdinstituut (2021) is het welbevinden de mate waarin iemand tevredenheid ervaart over zijn of haar leven: zowel lichamelijke als psychosociale gezondheid zijn bepalend daarin. In het geval van een chronische ziekte is die mate van tevredenheid lastiger te behalen doordat de lichamelijke problemen de overhand kunnen nemen bij de desbetreffende persoon en het gezin eromheen. In zijn onderzoek beschreef Cohen (1999), over de omgang van gezinnen met chronische kinderziekten, het als volgt: ‘de ziekte vraagt niet, hij eist’ (Cohen, 1999, p. 149). De ziekte ‘eist’ van het gehele gezin en heeft daardoor niet alleen gevolgen voor het welbevinden van het kind zelf, maar ook voor het welbevinden van diens (directe) omgeving (Cohen, 1999; Zan & Scharff, 2014). Het doel van de huidige studie is daarom meer inzicht te krijgen in de samenhang tussen het welbevinden van ouders en hun kinderen met een chronische ziekte.

## 1.2 Wederkerige relatie welbevinden ouders en kind

Uit eerdere onderzoeken is gebleken dat het welbevinden van kinderen, zowel met als zonder een chronische ziekte, erg afhankelijk is van het functioneren van hun gezin (Crandell, Sandelowski, Leeman, Havill, & Knafl, 2018; Leeman et al., 2016; Maurice-Stam et al., 2019). Zo vonden Crandell et al. (2018) dat het gedrag van ouders, bijvoorbeeld de opvoedingsstijl die zij toepassen, direct van invloed is op het welbevinden van hun kinderen. Bij een warme opvoedingsstijl vonden zij een associatie met verbeterde psychosociale kwaliteit van leven bij het kind: het kind was beter in staat om te functioneren en er was sprake van minder externaliserend probleemgedrag. Andersom kon 'afwijzing' weer geassocieerd worden met meer depressieve gevoelens en internaliserende problematiek bij het kind. Ook structuur die ouders kunnen bieden of chaos die ouders zelf ervaren kunnen geassocieerd worden met beter of slechter functioneren van het kind (Crandell et al., 2018). In het onderzoek van Leeman et al. (2016), welke gericht was op het functioneren van het gezin, werd voornamelijk samenhang aangetoond in de relatie tussen het gezinsfunctioneren en de psychosociale gezondheid van het kind. Zo bepaalde sociale cohesie en de relaties binnen het gezin de kinduitkomsten als kwaliteit van leven en sociale competentie. Conflict daarentegen correleerde weer sterk met probleemgedrag van het kind (Leeman et al., 2016).

Kinderen zijn (nog) erg afhankelijk van hun ouders en hun welbevinden wordt in sterke mate bepaald door het functioneren van het gezin. Hierdoor is het belangrijk om te kijken naar de gevoelde balans in draaglast en draagkracht van de ouders. Wanneer de eisen die aan je worden gesteld, bijvoorbeeld doordat jouw kind een chronische ziekte heeft, overeenkomen met wat je aankunt spreken we van een evenwicht in draaglast (de belasting) en draagkracht (de belastbaarheid). De draaglast wordt gevormd door factoren en eisen uit de omgeving die spanning veroorzaken, waar de draagkracht wordt bepaald door de mogelijkheden die iemand bezit om stress te voorkomen of ermee om te gaan (Hendriks, 2016). Queen, Butner, Wiebe en Berg (2016) benoemden in hun onderzoek dat ouders beïnvloed kunnen worden door gevolgen en problemen van de chronische ziekte van hun kinderen. Zij vonden dat de problemen waar het kind dagelijks tegenaan loopt binnen de ziekte de potentie heeft om het welbevinden van de ouder te destabiliseren. Negatieve gedachten en emoties, als gevolg van de ziekte van de kinderen, leken een negatief effect te hebben op de ouders (Queen et al., 2016). Deze zorgen kunnen resulteren in het groeien van de draaglast, waar draagkracht gelijk is gebleven: het gezin raakt uit balans (Trawicka et al., 2019; Van Keulen & Singer, 2017). Van Keulen en Singer (2017) beaamen het belang van de balans tussen draagkracht en draaglast. Wanneer de ouders uit balans raken, met als gevolg

een verminderd welbevinden van ouders, zullen de kinderen op hun beurt worden beïnvloed in hun welbevinden: de ontwikkeling komt in het geding (Van Keulen & Singer, 2017).

De wederkerige werking tussen het functioneren van kind en gezin kan om die reden niet over het hoofd worden gezien wanneer men kijkt naar het welbevinden van het chronisch zieke kind (Leeman et al., 2016). Ondanks dat er veel bekend is over het welbevinden van het kind en mogelijke factoren die dit welbevinden beïnvloeden, ontbreekt er nog wetenschappelijke kennis over een diepere laag in het welbevinden van de ouder (Kish, Newcombe & Haslam, 2018). Een laag die verder gaat dan financiële last en tijdsinvestering zoals benoemd in het onderzoek van Zan en Scharff (2014). Het effect van de zorglast op hun emotionele, sociale en geestelijk functioneren: ofwel hun welbevinden (Toledano-Toledano & Domínguez-Guedea, 2019). Daarnaast wordt het welbevinden van zowel ouder als hun kinderen met een chronische ziekte regelmatig afzonderlijk onderzocht, maar inzichten over de relatie tussen de twee concepten lijken te ontbreken. Dit is een gat in de wetenschappelijke literatuur waarop voortgebouwd wordt in de huidige studie.

### **1.3 Rapportage discrepantie**

In het huidige onderzoek wordt het welbevinden van ouder en kind vergeleken. Om de resultaten van het onderzoek goed te kunnen interpreteren is het belangrijk bewust te zijn van de mogelijke rapportagediscrepantie tussen ouder en kind. Zeker omdat ouders regelmatig rapporteren over hun jonge kinderen, aangezien zij zelf 'te jong' geacht worden dit zelf te doen. Wanneer deze ouders dan zelf niet lekker in hun vel zitten is de kans groter dat zij het welbevinden van hun kinderen ook slechter in kunnen schatten. Vanuit onderzoeken over psychopathologie is bekend dat ouders die zelf kampen met psychische ziekte een vertekend beeld kunnen hebben wat betreft de psychopathologie van hun kinderen (Comer & Kendall, 2004; De Los Reyes, 2011; Weems, Taylor, Marks & Varela, 2008). Wanneer dan geen gebruik is gemaakt van multi-informanten aanpak, zoals Comer en Kendall (2004) essentieel achten, kunnen resultaten van de onderzoeken vertekend zijn zonder dat men zich daar bewust van is. Om deze reden wordt daar in het huidige onderzoek wel aandacht aan besteed ter verbetering van de interpretatie van de onderzoeksresultaten.

Bij de vraag over de samenhang tussen het welbevinden van het kind en van de ouder is het dus interessant om te achterhalen of ouder en kind hetzelfde kijken naar welbevinden en het welbevinden van het kind. Dit kan een kader bieden voor de relatie, of de afwezigheid daarvan, tussen het welbevinden van ouders en het welbevinden van het kind. Uit onderzoek van Sixsmith, Gabhainn, Fleming en O'Higgins (2007) is gebleken dat er verschillen zijn in

de rapportage tussen ouders en kinderen wanneer het gaat over welbevinden. Comer en Kendall (2004) toonden in hun onderzoek naar verschillen in rapportage van symptomen bij jeugdigen met een gediagnostiseerde angststoornis eveneens aan dat rapportages door meerdere informanten essentieel is. Dit komt doordat tegenstrijdigheden in rapportages van verschillende informanten in klinische beoordelingen van kinderen en adolescenten regelmatig voorkomt (De Los Reyes, 2011). Dit benadrukt het belang van onderzoek naar de rapportagediscrepancies over het welbevinden van het kind in het huidige onderzoek.

#### **1.4 Huidige studie**

In de huidige studie zal worden ingegaan op de samenhang van het welbevinden van zowel de ouders als het welbevinden van hun chronisch zieke kind. Bij het welbevinden van ouders zal dieper ingegaan worden op hun eigen pijn en vermoeidheid en daarnaast de draagkracht die zij bezitten in de zorg voor hun zieke kind. Zo zou verhoogde draaglast, of verminderde draagkracht, van invloed kunnen zijn op het welbevinden van het kind. Andersom kan de kwaliteit van leven van het kind, de ervaren pijn en vermoeidheid, op zijn beurt weer effect hebben op het welbevinden van hun ouders (Queen et al., 2016). Daarnaast wordt dieper ingegaan op de rapportagediscrepancie tussen ouder en kind aangezien dit een kader biedt voor de samenhang in het welbevinden van ouder en kind (Comer & Kendall, 2004; De Los Reyes, 2011).

Onderzoek naar het welbevinden van ouders en hun kinderen is zowel wetenschappelijk als praktisch relevant. Het eerste, zoals eerder beschreven, omdat het een gat opvult in de huidige literatuur. Door de sterke samenhang kunnen het welbevinden van ouder en kind lastig afzonderlijk worden gezien (Crandell et al., 2018; Leeman et al., 2016; Maurice-Stam et al., 2019; Queen et al., 2016). Het tweede omdat onderzoek naar de samenhang van het welbevinden van ouder en kind behandelmogelijkheden vervroegt en verbetert. Wanneer het welbevinden van ouder en kind zo sterk samenhangt, zou men in behandeling van het kind met de chronische ziekte zich ook moeten focussen op de versterking van de ouder (Hartgers, 2004). Volgens Hartgers (2004) besteed men in de praktijk van de professionele hulpverlening (bijna) alle beschikbare tijd aan de patiënt en wordt er voornamelijk beroep gedaan op de steun van de naasten in plaats van hen die steun te bieden. Het huidige onderzoek kan een beter beeld geven van de samenhang tussen het welbevinden van het kind en hun ouders. Wanneer de samenhang groot is kan aangestuurd worden op hulpaanbod in een vroeg stadium mochten ouders veel draaglast ervaren en weinig draagkracht (Van Keulen & Singer, 2017). Zoals Hartgers (2004) schreef: ‘veel is gewonnen



wanneer dit zo vroeg mogelijk in de keten zodanig gebeurt, dat hulp in een latere fase niet of minder nodig zal zijn' want 'voorkomen is beter dan genezen' (Hartgers, 2004, p. 199).

De onderzoeksvragen en bijbehorende hypothesen die centraal staan in het huidige onderzoek zijn als volgt: 1) *Is er sprake van een verband tussen het welbevinden van de ouders en het welbevinden van het chronisch zieke kind?* en 2) *Is er sprake van overeenstemming over het welbevinden van het kind zoals gerapporteerd door de ouders (over het kind) en het kind (over zichzelf).* Om de onderzoeksvragen te beantwoorden wordt gebruik gemaakt van een bestaande dataset van grootschalig en longitudinale PROactive Cohort Studie<sup>1</sup>.

Op basis van bestaande literatuur kunnen enkele hypothesen worden opgesteld. De eerste hypothese is dat sprake zal zijn van een verband tussen het welbevinden van ouder en kind, doordat het welbevinden van kinderen met een chronische ziekte erg afhankelijk is van het functioneren van hun gezin (Crandell et al., 2018; Leeman et al., 2016). Eveneens lijken de ervaringen van ouders mee te bewegen met ervaringen van het kind in hun chronische ziekte (Queen et al., 2016). De verwachting is dus dat wanneer de ouder mogelijk weinig draagkracht ervaart of zelf erg moe is, dit mogelijk zal samenhangen met een verslechterde kwaliteit van leven en verhoogde pijn en moeheid bij het kind. Eveneens zullen verhoogde pijnervaringen en verslechterde kwaliteit van leven van het kind samenhangen met negatiever welbevinden bij de ouder.

Een tweede hypothese is dat ouders en hun kinderen verschillend rapporteren over het welbevinden van het kind. Uit onderzoeken is gebleken dat er verschillen zijn in de rapportage tussen ouders en kinderen wanneer het gaat over welbevinden (Berman, Liu, Ullman, Jadbäck & Egnström, 2016; Sixsmith et al., 2007). Beide studies tonen het belang van kinderrapportages als het gaat om het welbevinden van het kind. Wanneer we de concepten gebruiken waar zowel de ouder als het kind rapporteert over het kind is de verwachting dat er sprake zal zijn van een significant verschil tussen ouder- en kinderrapportage wanneer zij beiden rapporteren over het welbevinden van het kind.

---

<sup>1</sup> Patient Reported Outcomes in children and Adolescents with Chronic/life-threatening disease and Tailored InterVentions in a digital Environment (PROactive) (Van der Vlist et al., 2021).

## Methodie

### 2.1 Context van de studie

In het huidige onderzoek is gebruik gemaakt van een bestaande dataset. De dataset is afkomstig uit een grootschalig longitudinaal onderzoek (PROactive) vanuit het Wilhelmina Kinderziekenhuis in Utrecht sinds december 2016. Het doel van deze overkoepelende studie is het vroeg screenen van psychosomatische en mentale gezondheid in de klinische zorg van kinderen en hun families om mogelijke problemen te signaleren, bespreekbaar te maken en te voorkomen. Dit doen ze door de kinderen, adolescenten en volwassenen met een chronische ziekte te volgen over tijd zodat ze hen kunnen monitoren en hen gepaste steun kunnen bieden zodat zij zo 'gezonder' mogelijk kunnen opgroeien. De patiënt staat centraal en alle omgevingsfactoren welke een rol zouden kunnen spelen worden meegenomen bij de belemmeringen die de patiënten ervaren (Van der Vlist et al., 2021).

### 2.2 Participanten

Kinderen met verschillende chronische ziektes in een brede leeftijdsgroep (twee tot achttien) zijn geïncludeerd, evenals hun ouders. Het betreft kinderen met een chronische ziekte zoals jeugdreuma, Cystica Fibrosa (CF), aangeboren hartziekten, nierziekten, darmziekten, kinderen met chronische pijn en/of moeheid. In de huidige studie worden alle ziektegroepen meegenomen. Kinderen met een chronische aandoening konden deelnemen aan het onderzoek wanneer zij: 1) een leeftijd hadden tussen 2-18 jaar, 2) met een van de genoemde chronische condities gediagnostiseerd zijn, en 3) wanneer zij tenminste een jaar geleden gediagnosticeerd waren. De kinderen werden uitgesloten van deelname wanneer zij: 1) niet in staat waren de Nederlandse taal te begrijpen of lezen, 2) niet in staat waren online vragenlijsten in te vullen, en 3) in geval van kinderrapportage, achteraf een cognitieve beperking hebben onder het niveau van functioneren van een achtjarige.

Sinds maart 2021 hebben  $n=1918$  van de  $n=2770$  uitgenodigde patiënten de baselinemetingen aangeleverd. Met slechts een 69% responspercentage wat betreft *informed consent* bestaat de PROactive studie nu uit  $n=1306$  kinderrapportages en  $n=1761$  ouderrapportages. Deze dataverzameling is nog lopende. In de huidige studie zijn patiënten tot september 2020 meegenomen. De aangeleverde database bevatte  $n=977$ . Alle deelnemers die geen toestemming hebben gegeven voor gebruik van de ingevulde vragenlijsten, bij zowel kind als ouder, zijn verwijderd ( $n=58$ ). Daarnaast zijn er enkele deelnemers verwijderd

waarbij alle vragenlijsten leken te ontbreken ( $n=6$ ). Het totaal aantal deelnemers voor het huidige onderzoek is daardoor  $n=913$ .

Van alle patiënten zijn gegevens verzameld. De demografische kenmerken worden weergegeven voor de gehele groep, aangezien deelnemersaantallen verschillen per vragenlijst omdat deze leeftijdsafhankelijk zijn. Van de geïncludeerde kinderen is 53,4% vrouw en 46,6% man. De gemiddelde leeftijd van de kinderen is 10.93 ( $s=4,79$ ;  $n=834$ ) en van de ouders 42,8 ( $s=7,25$ ;  $n=859$ ). In de dataset zijn de deelnemers ingedeeld in een van de vier patiëntgroepen: 486 kinderen (53,2%) vallen in de groep (auto-)immuunziekten, 126 (13,8%) in de groep CF, 248 kinderen (27,2%) in de groep congenitale hartziekten en de overige 53 kinderen (5,8%) vallen in de groep kindernefrologie.

Daarnaast is ook bekend wie de vragenlijsten over het kind heeft ingevuld. Voornamelijk moeders hebben de vragenlijsten ingevuld. In totaal hebben 667 moeders (73,1%) en 153 vaders (16,8%) de vragenlijsten ingevuld. De groep vrouwelijke en mannelijke voogden is verwaarloosbaar (0,6%). Daarnaast hebben 87 deelnemers (9,5%) niks ingevuld: hiervan is niet bekend wie de vragenlijsten heeft ingevuld.

## 2.3 Procedure

Op de poliklinieken van de arts is gescreend welke kinderen in aanmerking komen voor de baselinebeoordeling. Wanneer een kind aan de inclusiecriteria voldeed, werd het gezin uitgenodigd om vragenlijsten in te vullen na het verkrijgen van *informed consent*. Alle patiënten en hun ouders zijn voorzien van een digitaal *informed consent* voor zowel de kinderen ( $> 11$  jaar) als zijn/haar ouder(s) en bestond uit het gebruik van gegevens uit de vragenlijsten voor wetenschappelijk onderzoek. Zij zijn zelf in staat gesteld om een vrijwillige beslissing te maken voor deelname. Voor jongere kinderen ( $<8$  jaar) vult één van de ouders de vragenlijsten in. Voor oudere kinderen (8-18 jaar) werd zowel het kind als een van de ouders gevraagd om de vragenlijsten te voltooien. Kinderen mochten gebruik maken van assistentie van hun ouders.

Voor de baselinemetingen (nulmeting) werd contact opgenomen met de gezinnen per e-mail drie weken voor een gepland poliklinisch bezoek. Gezinnen werden twee keer per e-mail en één keer per telefoon gecontacteerd. Bij uitblijvende reactie werd deze cyclus bij het volgende polikliniekbezoek herhaald. De vragenlijsten zijn afgenomen met behulp van KLIK. KLIK is een digitaal systeem om via internet vragenlijsten af te nemen. Naast vermoeidheid en pijn worden vragenlijsten afgenomen over sociale, psychologische en omgevingsfactoren die een rol zouden kunnen spelen bij de belemmeringen die de patiënten ervaren. De

geschatte tijd die participanten nodig hebben om de geselecteerde vragenlijsten te voltooien is 15-20 minuten voor de kernmetingen en 30-45 minuten voor de baseline en uitgebreide beoordeling. De vragenlijsten worden in dezelfde volgorde aangeboden aan iedere deelnemer. Er kunnen geen items worden overgeslagen. Wel kunnen deelnemers vroegtijdig stoppen. Vragenlijsten die dus als eerste zijn aangeboden hebben een hoger voltooiingspercentage.

De PROactive cohortstudie beschikt over een *Data Management Plan* (DMP). Een dataverzoek, zoals ook gedaan is voor de huidige studie, wordt besproken met clinici die de ziektegroepen vertegenwoordigen. Afhankelijk van de aard van het gegevensverzoek wordt gebruik gemaakt van overeenkomsten voor gegevensoverdracht of *Digital Research Environment* (DRE) om gegevens beveiligd te delen, in overeenstemming met de Europese gegevensbeschermings- en privacyregelgeving (Van der Vlist et al., 2021).

## **2.4 Instrumenten**

In het huidige onderzoek is gebruik gemaakt van kwantitatief onderzoek met een cross-sectioneel onderzoeksdesign: op basis van de bestaande dataset is geobserveerd hoe het welbevinden van ouders en hun kinderen met een chronische ziekte met elkaar samenhangt. Daarnaast is vastgesteld of er sprake is van gelijke rapportage tussen de ouders en hun kinderen op basis van hun rapportages over het welbevinden van het kind. Er is dus gebruik gemaakt van zowel de ouder- als kindrapportages. In Tabel 1 is een overzicht weergegeven van de vragenlijsten plus bijbehorende onderzoeksgroep en concepten.

**Tabel 1***Geïnccludeerde variabelen in het huidige onderzoek*

Kenmerk	Variabele	Test per leeftijd			
		2 t/m 7	8 t/m 12	12 t/m 18	
Ouderrapportage	Over ouder	Belasting ouders	LTO		
		Moeheid	CIS-20		
		Pijn	VAS pijn		
	Over kind	Kwaliteit van Leven	PedsQL4.0-GCS-P		
		Moeheid	PedsQL-MFS-P		
		Pijn en catastroferen t.a.v. pijn	VAS pijn & PCS-P		
Kindrapportage	Over kind	Kwaliteit van Leven	-	PedsQL4.0-GCS-C	PedsQL4.0-GCS-A
		Moeheid	-	PedsQL-MFS-C	PedsQL-MFS-A & CIS-8
		Pijn	-	VAS pijn & PCS-C	

*Noot.* Betreft baseline metingen: eerste meting als inclusie in PROactive.

### *Welbevinden van ouders*

In de huidige studie werd het ‘welbevinden van ouders’ geoperationaliseerd aan de hand van de volgende concepten: belasting ouders, moeheid van ouders en pijn die ouders ervaren. De bijbehorende vragenlijsten worden nader toegelicht.

#### **Belasting ouders.**

##### ***Last Thermometer Ouders (Van Oers, Schepers, Grootenhuis & Haverman, 2016).***

De Last Thermometer Ouders (LTO) bestaat uit 43 items verdeeld over vier onderdelen: 1) de thermometer waarop ouders op een schaal van 0 (helemaal geen last) tot 10 (extreem veel last) aangeven hoe het de afgelopen week is gegaan. 2) 29 onderwerpen waarbij ouders aangeven of ze daarmee de afgelopen week wel of geen last hebben ervaren. 3) Specifieke vragen over de opvoeding (deze verschillen afhankelijk van de leeftijd van het kind); 4) overige vragen over ervaren steun, ervaren onbegrip, (chronische) ziekte van de ouder, omgang met medisch personeel en of ouders zouden willen praten met een professional. Een voorbeeld van een item:

*‘Kunt u op emotioneel gebied aangeven of u zelf de afgelopen week, inclusief vandaag, hier moeite mee hebt gehad of problemen mee heeft ervaren (niet specifiek met betrekking tot uw kind, maar problemen voor uzelf)’*: Greep hebben op emoties (ja /nee).

De LTO is enkel ingevuld door de ouders wanneer hun kinderen een leeftijd hadden van 12, 15 of 18 jaar. De LTO is (nog) niet beoordeeld door de Cotan. Wel heeft onderzoek bij 1421 ouders acceptabele interne consistentie aangetoond (Cronbach's alpha tussen .52 en .89). In het huidige onderzoek is een Cronbach's Alpha gevonden van .898 ( $n=842$ ).

### **Moeheid ouder.**

**Checklist Individuele Spankracht (Vercoulen, Alberts & Bleijenburg, 1999).** De Checklist Individuele Spankracht (CIS-20) vragenlijst bestaat uit 20 uitspraken die nagaan hoe de persoon zich de laatste twee weken gevoeld heeft, waarbij aangegeven dient te worden in welke mate de uitspraak voor hem/haar van toepassing is. Er worden vier subschalen onderscheiden: 1) ernst van vermoeidheid, 2) concentratie, 3) motivatie, en 4) activiteit. De items worden gescoord op een 7-punts Likertschaal, waarbij het ene uiteinde van de schaal is beschreven als ‘ja, dat klopt’ en het andere als ‘nee, dat klopt niet’. Een voorbeeld van een item is: ‘Ik voel me moe’. De totaalscore heeft een range van 20 tot 140, waarbij hoge scores duiden op (meer) problemen. Onderzoek van Vercoulen et al. (1994) heeft een acceptabele interne consistentie aangetoond (.90). In het huidige onderzoek is eveneens een acceptabele Cronbach's Alpha gevonden van 0.949 ( $n=854$ ).

### **Pijn ouder.**

**Visual Analogue Scale (Waterfield & Sim, 1996).** De Visual Analogue Scale (VAS) is een specifieke meetschaal met één item, bestaande uit een horizontale of een verticale lijn (meest gebruikelijke lengte van de lijn is 100 mm lang). Aan de linker of onderste kant staat de minimum-score (helemaal geen pijnsensatie), aan de rechter of bovenste kant staat de maximum score (ondraaglijke pijnsensatie). De patiënt dient op de lijn aan te strepen in welke mate hij/zij de gevraagde sensatie beleeft. Het item waar het om gaat: ‘Hoe hevig was de pijn (gemiddeld) de afgelopen week (7 dagen)?’ Het aantal millimeter tussen de door de patiënt aangegeven streep en de minimum-score is de score van de VAS. De interne consistentie van de gehele lijst is acceptabel: 0.88 ( $n=130$ , populatie kankerpatiënten) (Padilla et al., 1983). Aangezien de VAS in het huidige onderzoek uit één item bestaat is er geen interne consistentie berekend.

## *Welbevinden van het kind*

In de huidige studie wordt het ‘welbevinden van het kind’ op twee manieren berekend. Enerzijds aan de hand van de vragenlijsten die zijn ingevuld door de ouders en anderzijds aan de hand van vragenlijsten die door de kinderen zelf zijn ingevuld. De volgende concepten worden meegenomen: Kwaliteit van leven, Moeheid en Pijn (en catastroferen t.a.v. pijn). De bijbehorende vragenlijsten worden hieronder toegelicht.

### **Kwaliteit van leven van het kind.**

#### ***De Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL)-GCS (Varni, Seid & Rode, 1999).***

De GCS-schaal bevat 23 items verdeeld over vier schalen: Lichamelijk-, Emotioneel-, Sociaal- en Schools functioneren. Een voorbeeld item van de ouderversie (GCS-P) is: ‘*Hoezeer heeft uw kind in de afgelopen maand een probleem gehad met: meer dan 100 meter lopen (lichamelijk functioneren)*’. Een voorbeeld item van de kindversie (GCS-C/A) betreft: ‘*Hoezeer heb je in de afgelopen maand een probleem gehad met: het is voor mij moeilijk om meer dan 100 meter te lopen (lichamelijk functioneren)*’. De ouders (GCS-P) of kinderen (GCS-C/A<sup>2</sup>) geven op een 5 puntenschaal aan hoezeer zij het dergelijke item van toepassing vinden in de afgelopen maand. De antwoordmogelijkheden reiken van ‘nooit’ (minimaal) tot en met ‘bijna altijd’ (maximaal). De totaalscore varieert tussen 0 en 100, waarbij hogere scores een betere kwaliteit van leven indiceren. De interne consistentie van de ouderversie heeft een Cronbach’s alpha van .87 (Bastiaansen, Koot, Bongers, Varni & Verhulst, 2004). In het huidige onderzoek is een Cronbach’s Alpha gevonden van .923 ( $n=692$ ). De interne consistentie van de kindversie heeft een Cronbach’s alpha van .84 (Bastiaansen et al., 2004). In het huidige onderzoek is een Cronbach’s Alpha gevonden van .906 ( $n=544$ ).

### **Moeheid van het kind.**

***De Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL)-MFS (Varni et al., 1999).*** De MFS-vragenlijst bevat 24 items verdeeld over drie schalen: Algemene-, slaap/rust en geestelijke vermoeidheid. Een voorbeeld item van de ouderversie (MFS-P) betreft: ‘*Hoezeer heeft uw kind in de afgelopen maand een probleem gehad met: lichamelijk zwak voelen (algemene vermoeidheid)*’. Een voorbeeld item van de kindversie (MFS-C/A) betreft: ‘*Hoezeer is dit voor jou in de afgelopen maand een probleem geweest: ik voel me lichamelijk zwak (algemene vermoeidheid)*’. De ouders (MFS-P) of de kinderen (MFS-C/A) geven op een 5 puntenschaal aan hoezeer zij het dergelijke item van toepassing vinden in de afgelopen maand. De antwoordmogelijkheden reiken van ‘nooit’ (minimaal) tot en met ‘bijna altijd’

---

<sup>2</sup> P=parent, C=child, A=adolescent.

(maximaal). De totaalscore varieert tussen 0 en 100, waarbij hogere scores een betere kwaliteit van leven indiceren. De interne consistentie van de ouderversie heeft een Cronbach's alpha van .87 (Bastiaansen et al., 2004). In het huidige onderzoek is een Cronbach's Alpha gevonden van .944 ( $n=823$ ). De interne consistentie van de kindversie heeft een Cronbach's alpha van .84 (Bastiaansen et al., 2004). In het huidige onderzoek is een Cronbach's Alpha gevonden van .905 ( $n=543$ ).

**Checklist Individuele Spankracht (Vercoulen et al., 1999).** De Checklist Individuele Spankracht (CIS-8) bestaat uit 8 items. Deze 8 items zijn hetzelfde als de items uit de schaal *ernst van vermoeidheid* van de CIS-20. Deze schaal is speciaal voor tieners en vraagt deelnemers hoe hij/zij zich de laatste twee weken gevoeld heeft, waarbij aangegeven dient te worden in welke mate de uitspraak voor hem/haar van toepassing is. De items worden gescoord op een 7-punts Likertschaal, waarbij het ene uiteinde van de schaal is beschreven als 'ja, dat klopt' en het andere als 'nee, dat klopt niet'. Een voorbeeld van een item is: 'Ik voel me moe'. Het meetniveau is ordinaal. Onderzoek van Vercoulen et al. (1994) heeft acceptabele interne consistentie aangetoond voor de subschaal *ernst van vermoeidheid* (.88). In het huidige onderzoek is een Cronbach's alpha gevonden voor deze subschaal van .938 ( $n=507$ ).

#### **Pijn en catastroferen t.a.v. pijn.**

**Pain Catastrophizing Scale (Sullivan, Bishop & Pivik, 1995).** De Pain Catastrophizing Scale (PCS)-vragenlijst bestaat uit 13 items, verdeeld over drie subschalen: 1) ruminatie, 2) magnificatie en 3) hulpeloosheid. De respondent dient aan te geven in welke mate de uitspraak van toepassing is voor hem/haar (PCS-C) of voor zijn/haar kind (PCS-P) door het plaatsen van een cijfer op een vijf-puntenschaal (0= helemaal niet van toepassing, 4= heel erg van toepassing). Een voorbeeld item van de kindversie (PCS-C) is: "als ik pijn heb, vraag ik mij voortdurend af of de pijn wel zal ophouden." Een voorbeeld item van de ouderversie (PCS-P) is: "als mijn kind pijn heeft, vraag ik mij voortdurend af of de pijn wel zal ophouden." De interne consistentie van de kindversie varieert tussen 0.86 en 0.89 (Cronbach's alfa) (Crombez et al., 2003). In het huidige onderzoek is een interne consistentie gevonden van .911 ( $n=536$ ). De interne consistentie van de ouderversie varieert tussen 0.85 en 0.91 (Cronbach's alfa) (Sullivan et al., 1995). In het huidige onderzoek is een interne consistentie gevonden van .927 ( $n=802$ ).

**VAS pijn (Waterfield & Sim, 1996).** De VAS pijn is hetzelfde als de VAS pijn die ouders over zichzelf invullen. Het betreft een meetschaal met één item, bestaande uit een horizontale of een verticale lijn. Aan de linker of onderste kant staat de minimum-score



(helemaal geen pijnsensatie), aan de rechter of bovenste kant staat de maximum score (ondraaglijke pijnsensatie). Voorbeeld item: ‘*Hoe hevig was de pijn (gemiddeld) de afgelopen week (7 dagen)?*’ De patiënt dient op de lijn aan te strepen in welke mate hij/zij de pijnsensatie beleeft of de ouders dienen op de lijn aan te strepen in welke mate zij denken dat hun kind de pijnsensatie heeft beleefd. Het aantal millimeter tussen de aangegeven streep en de minimum-score is de score van de VAS. De interne consistentie (Cronbach’s Alpha) van de gehele lijst is 0.88 ( $n=130$ , populatie kankerpatiënten) (Padilla et al., 1983). Aangezien de VAS in het huidige onderzoek uit één item bestaat kon er geen interne consistentie worden berekend.

## 2.5 Statistische analyses

De data zijn veilig opgeslagen op de netwerkdrive van de Rijksuniversiteit Groningen (UWP Data Storage), die voldoet aan de UG Data Policy. De netwerkdrive (Y-schijf) is alleen toegankelijk voor het onderzoeksteam (Anna Lichtwarck-Aschoff, Corrie de Haas en Lisa Hofstede) en de facultaire onderzoeksdirecteur.

### *Vorbereidende analyses*

De Statistical Package for Social Sciences (SPSS) versie 26 is gebruikt voor alle statistische analyses. Allereerst is de onderzoeksgroep beschreven aan de hand van demografische data (geslacht, leeftijd, ziektegroep). Eveneens is er per vragenlijst een interne consistentie berekend (Cronbach’s alpha), waarbij een minimumwaarde van 0.70 als acceptabel is gehanteerd.

Als eerste is beschrijvende statistiek gemeten: gemiddeldes, standaarddeviaties, range. De beschrijvende statistiek biedt een context voor de hoofdanalyses. Vervolgens zijn de assumpties doorlopen waaraan voldaan moest worden voor de toepassing van de analysemethoden. Enkele vragenlijsten voldoen niet aan de assumpties van normaliteit en lineariteit. Om deze reden is besloten om non-parametrische toetsen toe te passen die de assumpties niet hanteren.

### *Hoofdanalyses*

Uitvoeren analysemethoden per onderzoeksvraag.

**Onderzoeksvraag 1.** Om de samenhang tussen het welbevinden van ouders en hun kinderen met chronische ziekte te berekenen is gebruik gemaakt van een non-parametrische

correlationele analysemethode. Daarbij is vastgesteld of er sprake is van een verband en of deze positief of negatief is. De relevante variabelen van het welbevinden van de ouder worden vergeleken met de relevante variabelen van het kind. Hierbij wordt onderscheid gemaakt tussen ouderrapportage en kindrapportage: in de leeftijd twee tot zeven is gebruik gemaakt van de ouderrapportage omdat er geen kindrapportage aanwezig is. Het is bedoeld als explorierend en breed onderzoek.

**Onderzoeksvraag 2.** Om de rapportageverschillen of overeenkomsten van ouders en hun kinderen (over het welbevinden van het kind) te vergelijken is gebruik gemaakt van een gepaarde t-toets. Daarbij is gekozen om een tweezijdige toets toe te passen om alle mogelijkheden te includeren. Hierbij worden alleen de variabelen gebruikt waarvan zowel een ouderrapportage als een kindrapportage beschikbaar is. Daarbij is de volgende nulhypothese getoetst: de gemiddelde score van de ouders is gelijk aan de gemiddelde score van de kinderen. Ondanks de relatieve bestendigheid van de t-toets tegen de schending van de assumpties, is ervoor gekozen ter controle ook een non-parametrische toets uit te voeren. Aangezien de resultaten onveranderd bleken worden de resultaten van de gepaarde t-toets gebruikt en besproken.

## Resultaten

### 3.1 Beschrijvende analyses

De beschrijvende data worden weergegeven in tabel 2. De meegenomen vragenlijsten hebben allemaal verschillende aantallen deelnemers ( $n$ ). Hieruit wordt duidelijk welke vragenlijsten waarschijnlijk als eerste zijn aangeboden aan de patiënten en/of hun ouders en daardoor vaker volledig zijn ingevuld ten opzichte van vragenlijsten die als laatste werden aangeboden. Tevens heeft de leeftijd ook invloed gehad op het wel of niet invullen van de vragenlijsten, omdat kinderen onder de acht jaar niet zelfstandig vragenlijsten hebben ingevuld. Hierdoor is de  $n$  bij de kindrapportages lager.

Wanneer wordt gekeken naar de gemiddeldes valt allereerst op dat de ouders gemiddeld 4.97 scoren op de thermometer. Uit het onderzoek van Haverman et al. (2013) bleek dat de ouders een gemiddelde hadden van 3.7 ( $n=706$ ). Een score boven de 4 geeft aan dat ouders ernstige last hebben van stress en een verminderd welzijn (Haverman et al., 2013). Hetzelfde gebeurt bij de CIS-20 waar de gemiddelde score van de huidige onderzoeksgroep aanzienlijk hoger blijkt dan die van een gezonde onderzoeksgroep ( $m=41,5$ ;  $SD=19,8$ ) (Vercoulen et al., 1999). Ook de resultaten van de PedsQL uit het huidige onderzoek zijn

vergelijkbaar met de resultaten van een onderzoeksgroep bestaande uit chronisch zieke deelnemers uit het onderzoek van Schepers et al. (2017). De gezonde onderzoeksgroep uit

**Tabel 2**

*Beschrijvende statistiek.*

Kenmerk	Concept	Vragenlijst	Descriptives					
			Tot (n)	Gem (m)	SD	Range Min Max		
Ouder rapportage	Over ouder	Belasting	LTO	815	4,97	5,58	00	29,00
		Moeheid	CIS-20	826	56,84	25,09	20,00	140,00
		Pijn	VAS	831	1,49	2,4	0	10
	Over kind	Kwaliteit van leven	PedsQL	807	75,6	16,8	14,13	100,00
		Moeheid	PedsQL- Fatigue	804	73,97	19,72	6,94	100,00
		Pijn	VAS	831	1,99	2,62	0	10
Kind rapportage	Over kind	Kwaliteit van leven	PCS-P	782	11,02	9,26	0	48,00
		PedsQL	528	76,80	14,83	23,91	100,00	
	Pijn	Moeheid	PedsQL- Fatigue	526	71,34	16,81	11,11	100,00
		CIS-8	491	26,51	13,44	8,00	56,00	
		VAS-C	526	2,50	2,64	0	10	
	PCS-C	520	9,94	8,89	00	43,00		

*Noot.* Aantal deelnemers dat alle vragenlijsten heeft ingevuld is  $n=382$ .

hetzelfde onderzoek van Schepers et al. (2017) laat gemiddeld hogere scores zien wat een betere kwaliteit van leven inhoudt. Ten opzichte van een gezonde onderzoeksgroep doet de huidige onderzoeksgroep het gemiddeld gezien minder goed.

De gemiddeldes van de pijnscores, de VAS pijn en de PCS-P/C, zijn daarentegen onopvallend. De VAS pijn score 1-3 betekent geen tot lichte pijn (V&VN, 2018) en een totale PCS-score van 30 betekent dat we kunnen spreken van een klinisch relevant niveau van catastrofen (Sullivan et al., 1995). In beide gevallen zijn in de huidige onderzoeksgroep geen opvallende gemiddelde scores gevonden.

Voornamelijk de PedsQL en CIS-vragenlijsten laten een relatief grote standaarddeviatie zien. Bij deze vragenlijst is er dus sprake van een grote spreiding rond het gevonden gemiddelde van de patiënten en hun ouders. We spreken dus van grote verschillen tussen de scores van de individuele deelnemers, mede ook doordat de range mogelijkheden van deze vragenlijsten ruim is. Een mogelijke verklaring hiervoor kan zijn dat de verschillende leeftijdsgroepen zijn samengevoegd in het gemiddelde.

### 3.2 Hoofdanalyses

#### *Verband welbevinden kind en ouder*

De onderzoeksvraag naar de samenhang in het welbevinden tussen ouders en hun chronisch zieke kinderen is breed opgezet. Er is onderscheid gemaakt in de leeftijdsgroep twee tot zeven (zie tabel 3) en de leeftijdsgroep acht tot achttien (zie tabel 4). Daarbij is enkel de correlatie berekend tussen vergelijkbare concepten. De variabele *belasting ouder*, berekend aan de hand van de LTO, is gecorreleerd met alle variabelen die het welbevinden van het kind bepalen. Wanneer ouders de opvoeding als belastend ervaren, kan dit gevolgen hebben voor de ontwikkeling en het welbevinden van het kind. Eveneens kunnen de gevolgen van de chronische ziekte bijdragen aan een hogere belasting voor de ouder (Queen et al., 2016; Van Keulen & Singer, 2017).

**Tabel 3**

Correlaties tussen relevante variabelen in het onderzoek leeftijd 2-7

Schaal	Kvl kind (PedsQL-P)	Moeheid Kind (PedsQL-Fatigue-P)	Pijn Kind (VAS-P)	Pijn kind (PCS-P)
1. Belasting ouder (LTO)	<b>-.420</b>	<b>-.382</b>	<b>.364</b>	<b>.336</b>
2. Moeheid ouder (CIS-20)	<b>-.256</b>	<b>-.244</b>		
3. Pijn ouder (VAS)			<b>.229</b>	<b>.142</b>

*Noot.* Correlaties zijn berekend op basis van ouderrapportages omdat in deze leeftijdsgroep geen kinderrapportages beschikbaar zijn. Dikgedrukte correlaties zijn significant bij een significantieniveau van .05.

**Tabel 4***Correlaties tussen relevante variabelen in het onderzoek leeftijd 8-18*

Schaal	Kvl kind (PedsQL)	Moeheid kind (PedsQL- Fatigue)	Moeheid kind (CIS-8)	Pijn kind (VAS)	Pijn kind (PCS- C/A)
1. Belasting ouder (LTO)	<b>-.267</b>	<b>-.245</b>	<b>.188</b>	.094	<b>.169</b>
2. Moeheid ouder (CIS-20)	<b>-.269</b>	<b>-.289</b>	<b>.254</b>		
3. Pijn ouder (VAS)				<b>.137</b>	<b>.080</b>

*Noot.* Dikgedrukte correlaties zijn significant bij een significantieniveau van .05.

De gevonden resultaten zijn enigszins verrassend. Op basis van de literatuur was de verwachting dat er sprake zou zijn van sterke samenhang in welbevinden, wat zichtbaar zou worden in het huidige onderzoek door een sterke correlatie ( $>.70$ ) tussen de variabelen. Echter is er bij de meeste variabelen sprake van een zwakke ( $<.30$ ) of matige correlatie (.30-.50). Desondanks zijn bijna alle correlaties significant.

Wanneer wordt gekeken naar de gevonden correlaties is het allereerst interessant dat bij de kinderen van twee tot acht jaar (zie tabel 4) de belasting van de ouder significant matig correleert met alle variabelen die onderdeel uitmaken van het welbevinden van het kind. Wanneer er dus iets aan de hand is met het welbevinden van het kind, denk aan heftige pijn of moeheid, zien we wel degelijk samenhang met de last die ouders ervaren in de opvoeding. Hetzelfde geldt voor moeheid ouder: ondanks dat deze correlaties iets lager liggen is er samenhang gevonden tussen de moeheid die ouders ervaren en de kwaliteit van leven of moeheid die kinderen ervaren.

De richting van de correlaties is eveneens passend bij de verwachtingen. De negatieve correlatie van *belasting ouder* en *moeheid kind* is een significant zwakke correlatie en de richting is zoals verwacht: hogere scores op de PedsQL-Fatigue betekent dat er minder sprake is van problematiek en indiceert dus een lagere belasting voor ouders. Wanneer ouders dus een hoge last ervaren, zichtbaar in een hoge score op de LTO, ervaren kinderen dus vaak meer

problemen, zichtbaar in een lage score op de PedsQL. Hetzelfde geldt voor de negatieve correlatie van *moehheid ouder* (CIS-20), hoge scores betekenen meer problemen, en *moehheid kind* (PedsQL-Fatigue), lage scores betekenen meer problemen. Alle correlaties die zijn berekend met de PedsQL(-Fatigue) zijn om deze reden negatief.

Ten slotte is opvallend dat de hoogste correlaties zijn gevonden in de jongere leeftijdsgroep (zie tabel 3). In deze tabel is enkel gebruik gemaakt van ouderrapportages wat volgens de verwachting de resultaten meer zou kunnen kleuren dan kinderrapportages die zijn gebruikt in de hogere leeftijdsgroep (zie tabel 4). Zo heeft de pijn van ouders meer samenhang met de pijn van hun kinderen op basis van de ouderrapportages dan op basis van de kinderrapportages.

### *Rapportagediscrepantie*

De onderzoeksvraag naar eventuele rapportageverschillen tussen ouders en hun kinderen is beantwoord aan de hand van een gepaarde t-toets. In het huidige onderzoek waren de correlaties gevonden uit enkel ouderrapportages over het algemeen iets hoger dan correlaties gevonden tussen ouder- en kindrapportages. De resultaten van de gepaarde t-toets laten zien of ouder en kind gelijkmatig rapporteren over het welbevinden van het kind.

**Pain Catastrophic Scale.** Het verschil in gemiddelde scores voor ouder ( $M = 11.02$ ;  $SD = 9.26$ ) en kind ( $M = 9.94$ ;  $SD = 8.89$ ) is significant bevonden in het huidige onderzoek ( $t(425): -2.26, p < .025$ ). De gemiddelde score van de kinderen lag dus significant lager dan de gemiddelde score van de ouders. Ouders schatten de pijnervaring van hun kind dus hoger in dan het kind zelf. Om deze reden moet de nulhypothese worden verworpen ( $H_0: \mu \text{ ouder} = \mu \text{ kind}$ ). Dit is overeenkomstig met de verwachtingen dat ouders en kinderen niet gelijkmatig rapporteren over de pijnervaringen van het kind.

**Visueel Analoge Schaal pijn.** De gemiddelde pijn-score van ouders ( $M = 2.05$ ;  $SD = 2,68$ ) was lager dan die van hun kind ( $M = 2,41$ ;  $SD = 2,64$ ). Dit verschil was significant:  $t(446): 3,23, p < .001$ . Nu lag de gemiddelde score van de kinderen significant hoger dan die van hun ouders. Aan de hand van deze vragenlijst schatten de ouders gemiddeld gezien de pijnervaringen van hun kind lager in dan kinderen zelf deden. Om deze reden moet de nulhypothese worden verworpen. Dit is overeenkomstig met de verwachtingen dat ouders en kinderen niet gelijkmatig rapporteren over de pijnervaringen van het kind.

**PedsQL-Kwaliteit van leven.** Het verschil in gemiddelde scores voor ouder ( $m = 74.76$ ;  $SD = 17.08$ ) en kind ( $M = 77.26$ ;  $SD = 15.01$ ) is significant bevonden in het huidige onderzoek ( $t(439): 4.34, p < .000$ ). De gemiddelde score van de kinderen op de PedsQL lag

thus significant higher than the average score of the parents. Based on the PedsQL, parents rated the quality of life of their children on average lower than the children themselves. For this reason, the null hypothesis must be rejected ( $H_0: \mu_{\text{parent}} = \mu_{\text{child}}$ ). This is consistent with the expectations that parents and children do not report equally on the quality of life of the child.

**PedsQL-Fatigue.** The difference in average scores of parents ( $M = 72.83$ ;  $SD = 19.92$ ) and their child ( $M = 72.01$ ;  $SD = 17.08$ ) on the PedsQL-Fatigue is not significant:  $t(435): -1.27, p < .205$ . The average scores of parent and child were almost equal. When it comes to the fatigue of the child, parents and their children on average report relatively equally. For this reason, the null hypothesis is not rejected. This is contradictory to the expectation that parents and their children do not report equally.

## Discussie

### 4.1 Discussie resultaten

The current study aimed to contribute to existing research on the well-being of parents and their chronically ill children by examining the relationship between the well-being of parent and child. Explicitly, it was examined whether there is a relationship between parental burden, fatigue and pain experienced by parents and the quality of life, fatigue and pain experienced by children with a chronic illness. It was found that there is indeed a relationship between these concepts. This is supported by research that also shows that the well-being of parents and their children with a chronic illness is related (Crandell et al., 2018; Leeman et al., 2016; Maurice-Stam et al., 2019). The burden of the parent was related to all variables that make up the well-being of the child. The problems that the child experiences daily against the illness have the potential to destabilize the well-being of the parent (Queen et al., 2016). Just as an imbalance in carrying capacity and carrying load can be a threat to the well-being and development of the child (Van Keulen & Singer, 2017). The current research group scored relatively lower than research groups consisting of participants without a chronic illness on the last thermometer, CIS-20 and PedsQL (Haverman et al., 2013; Vercoulen et al., 1999; Schepers et al., 2017). This is in line with the expectation that the chronic illness goes along with more 'carrying load', where carrying capacity remains the same (Trawicka et al., 2019; Van Keulen & Singer, 2017).

Aangezien zowel ouders als kinderen hebben gerapporteerd over het welbevinden van het kind, is ook rekening gehouden met een mogelijke rapportagediscrepancie van ouder en kind wanneer zij rapporteren over het welbevinden van het kind. In bijna alle gevallen bleken ouder en kind in het huidige onderzoek verschillend te rapporteren over het welbevinden van het kind in lijn met de literatuur (Comer & Kendall, 2004; De Los Reyes, 2011). Daarnaast werden in de jongere onderzoeksgroep, daar waar enkel gebruik is gemaakt van ouderrapportages, ook de hoogste correlaties aangetoond. Dit sluit aan bij de verwachting dat ouders en kinderen verschillend rapporteren over het welbevinden van het kind (Sixsmith et al., 2007). Mogelijk kan de psychopathologie van de ouder hun kijk op de psychopathologie van het kind vertekenen (Comer & Kendall, 2004; De Los Reyes, 2011; Weems et al., 2008). Een alternatieve verklaring voor de hogere correlaties in de jongere onderzoeksgroep zou kunnen zijn dat jonge kinderen nog volledig afhankelijk zijn van hun ouders. Naarmate zij ouder worden neemt de afhankelijkheid af, maar tot die tijd spelen ouders een belangrijke rol in de stimulatie en belemmering van de ontwikkeling van hun kinderen (Kuyk & Sinnema, 2012).

Tegen de verwachting in bleken ouder en kind wel gelijkmatig te rapporteren, aan de hand van de PedsQL-Fatigue, over de moeheid van het kind. Het is niet helemaal duidelijk wat maakt dat ouders en kinderen in het huidige onderzoek geen rapportagediscrepancie lijken te hebben als het gaat om de moeheid van het kind. Moeheid komt veel voor bij kinderen met een chronische ziekte en heeft weer gevolgen voor de kwaliteit van leven en de capaciteit om goed om te kunnen gaan met pijn (Nap-Van der Vlist et al., 2019). Dat maakt pijn en kwaliteit van leven een indirect begrip en daardoor ook minder tastbaar. Mogelijk is moeheid een beter meetbaar begrip voor ouders dan pijn of de kwaliteit van leven van het kind (Gaultney, Bromberg, Connelly, Spears & Schanberg, 2017).

#### **4.2 Sterke punten, limitaties en suggesties voor vervolgonderzoek**

Om de onderzoeksvragen te kunnen beantwoorden is gebruik gemaakt van een grote dataset verzameld aan de hand van valide en betrouwbare gestandaardiseerde instrumenten. De interne consistenties van de individuele onderzoeksvragen waren goed. Daarnaast was de onderzoeksgroep groot, waardoor de resultaten representatief zijn voor de populatie van kinderen met een chronische ziekte en hun ouders in Nederland. Toen bleek dat de data niet voldeed aan de assumpties van de analysemethoden, is gebruik gemaakt van non-parametrische toetsen. Ten slotte is het mogelijk om het onderzoek te reproduceren, mede door gebruik van gestandaardiseerde instrumenten, wat de betrouwbaarheid ten goede komt.



Desondanks kunnen we ook spreken van enkele limitaties in het huidige onderzoek. Allereerst is gebleken gedurende de uitvoering van het onderzoek dat er sprake was van verschillende responspercentages tussen de vragenlijsten. Dit komt omdat ouders en kinderen zijn gevraagd de vragenlijsten in te vullen maar wel de mogelijkheid kregen vroegtijdig te stoppen. De vragenlijsten die als eerste werden uitgevraagd hebben daardoor betere respons. Desondanks bleken de onderzoeksgroepen toch een minimum van 490 deelnemers te hebben, waardoor de groep nog steeds representatief is voor de populatie van kinderen met een chronische ziekte. In vervolgonderzoek zou hier rekening mee gehouden kunnen worden door de vragenlijsten in random volgorde aan te bieden aan deelnemers om te voorkomen dat enkele vragenlijsten een aanzienlijk lager responspercentage hebben.

Ten tweede zijn de leeftijdsgroepen, kind en adolescent, vaak samengenomen in de berekening van gemiddeldes. Dat terwijl de afhankelijkheid van kinderen naar hun ouders wel veranderd naarmate zij ouder worden (Kuyk & Sinnema, 2012). Dit zou gevolgen kunnen hebben voor de samenhang in welbevinden van ouder en kind: de samenvoeging van groepen kan een vertekening geven van de resultaten. Dit wordt benadrukt door de gevonden resultaten: hogere correlaties in de jongere onderzoeksgroep in het huidige onderzoek. Aan te bevelen voor vervolgonderzoek is om te kijken naar een onderscheid in kleinere leeftijdsgroepen bij de analyses.

Ten derde kan men zich afvragen of de ecologische validiteit van het onderzoek wel gewaarborgd is, aangezien ouders en hun kinderen retrospectieve vragenlijsten hebben ingevuld vooraf aan een polibezzoek. Men kan zich afvragen hoe goed men in staat is aan te geven hoe het ging in de afgelopen week. Zo toonde Friedberg en Sohl (2008) aan dat symtroomrapportering vanuit het geheugen kan resulteren in een overschatting van de symptomen. Daarnaast vonden Bergh & Walentynowicz (2016) dat men de neiging heeft de negatieve gevoelens en emoties beter te onthouden, hetgeen eveneens leidt tot de overschatting van symptomen. Ook zouden de verwachtingen die gekoppeld zijn aan de vervolgfafspraak misschien de antwoordpatronen kunnen beïnvloeden. Om de ecologische validiteit beter te waarborgen zou men in vervolgonderzoek eventueel kunnen kijken naar de mogelijkheden voor *Ecological Momentary Assessment* (EMA) om de hierboven genoemde gevolgen van retrospectief vragenlijstenonderzoek te beperken. De EMA-methode omvat een verzameling van dataverzamelingsmethoden die de volgende kenmerken omvat: het herhaaldelijk en in het moment meten van gegevens uit het dagelijks leven, zoals subjectieve ervaringen (Shiffman, Stone & Hufford, 2008). In hun onderzoek raden May, Junghaenel, Ono, Stone en Schneider (2018) het gebruik van EMA aan in klinische onderzoeken naar de

veranderingen in pijnervaringen: het helpt de werkelijke pijnervaringen te meten zonder de vertroebeling door veranderingen in opvattingen over pijn of gebruik van herinnering aan symptomen. Aangezien de chronische ziekte een permanent onderdeel is van het gezinsleven wordt eveneens het gebruik van een longitudinaal onderzoeksdesign aangeraden. Dit kan helpen om een beter inzicht te krijgen in symptoompatronen en de dynamische processen in het dagelijks leven die daaraan ten grondslag liggen (Shiffman et al., 2008). Binnen het PROactive onderzoek wordt het longitudinaal onderzoeksdesign momenteel al toegepast (Van der Vlist, 2021).

Ten slotte geven de resultaten van het huidige onderzoek enkel aan dat er sprake is van discrepantie en samenhang. Uit het huidige onderzoek wordt niet duidelijk wat achterliggende oorzaken kunnen zijn van de samenhang of discrepantie. Doordat het onderzoek is bedoeld als explorerend en breed, is dat begrijpelijk. Een suggestie voor vervolgonderzoek zou zijn om te achterhalen of het welbevinden van de ouder als mogelijke moderator kan dienen voor rapportageverschillen tussen ouder en kind (over welbevinden van het kind). Uit voorgaande onderzoeken is gebleken dat de psychopathologie van de ouder de resultaten kan vertekenen (Comer & Kendall, 2004; De Los Reyes, 2011; Weems et al., 2008). Onderzoek naar de informatiediscrepantie tussen ouder en kind kan bijdragen aan beter begrip van de behoeften die er zijn bij het kind met een chronische ziekte en het systeem, zodat men beter weet op wat en wie de behandeling gericht moet worden. De chronische ziekte eist van het gehele gezin en vraagt daarom een brede ondersteuning (Cohen, 1999; Zan & Scharff, 2014).

### **4.3 Conclusie**

In het huidige onderzoek is gebleken dat er sprake is van significante samenhang tussen het welbevinden van ouders en hun chronische zieke kind. Uit eerdere onderzoeken is gebleken dat het welbevinden van kinderen en ouders verbonden is met elkaar (Crandell et al., 2018; Leeman et al., 2016; Maurice-Stam et al., 2019; Queen et al., 2016). Het huidige onderzoek heeft laten zien dat dit ook geldt voor kinderen met een chronische ziekte. Doordat de huidige professionele hulpverlening meestal alle beschikbare tijd aan de patiënt besteed en daarnaast voornamelijk beroep doet op de steun van het gezin in plaats van hen die steun te bieden, is er een risico dat dit ten koste gaat van de balans in het gezin (Hartgers, 2004; Trawicka et al., 2019; Van Keulen & Singer, 2017). Men zou in de behandeling van het kind zich ook moeten focussen op de versterking van de capaciteiten van de ouder zodat zij in staat zijn de balans tussen draagkracht en draaglast te behouden. De huidige gezondheidszorg is erg medisch ingestoken terwijl de afwezigheid van gezondheidsklachten niet automatisch leidt tot

een verbeterd welbevinden (Nijhof et al., 2015; UMCG, 2017). Ook uit het huidige onderzoek is gebleken dat de ‘zieke’ onderzoeksgroep in elk geval op een aantal dimensies ‘slechter’ scoort ten opzichte van gezonde leeftijdsgenoten en gezinnen (Haverman et al., 2013; Schepers et al., 2017; Vercoulen et al., 1999). De behandeling van het kind zou dus verder moeten gaan dan symptoombehandeling.

Daarnaast is ook aangetoond dat er wel degelijk sprake is van een rapportagediscrepancie tussen ouder en kind wanneer zij rapporteren over het welbevinden van het kind. De resultaten sluiten aan bij bestaand wetenschappelijk onderzoek en bevestigen des te meer het belang van een systeembenadering in de zorg voor het kind met de chronische ziekte. Omdat ouder en kind niet gelijkmatig rapporteren, is het belangrijk multi-informanten aanpak toe te passen (Comer & Kendall, 2004). Meerdere perspectieven leveren belangrijke informatie op voor een volledige beoordeling van het welbevinden van ouder en kind (Berman et al., 2016). Op deze manier kan er binnen de gezondheidszorg aangestuurd worden op systeemgericht hulpaanbod in een vroeg stadium zodat gezinnen minder belemmeringen ondervinden in hun welbevinden en beter kunnen leren leven met de chronische ziekte.

## Literatuurlijst

- Bastiaansen, D., Koot, H., Bongers, I., Varni, J., & Verhulst, F. (2004). Measuring quality of life in children referred for psychiatric problems: Psychometric properties of the PedsQLTM4.0 generic core scales. *Quality of Life Research, 13*(2), 489–495. <https://doi.org/10.1023/b:qure.0000018483.01526.ab>
- Berman, A. H., Liu, B., Ullman, S., Jadbäck, I., & Engström, K. (2016). Children's quality of life based on the KIDSCREEN-27: Child Self-Report, parent ratings and Child-Parent agreement in a swedish random population sample. *PLOS ONE, 11*(3). <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0150545>
- Cohen, M. S. (1999). Families coping with childhood chronic illness: A research review. *Families, Systems, & Health, 17*(2), 149–164. <https://doi.org/10.1037/h0089879>
- Comer, J. S., & Kendall, P. C. (2004). A Symptom-Level examination of Parent–Child agreement in the diagnosis of anxious youths. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry, 43*(7), 878–886. <https://doi.org/10.1097/01.chi.0000125092.35109.c5>
- Crandell, J. L., Sandelowski, M., Leeman, J., Havill, N. L., & Knafl, K. (2018). Parenting behaviors and the well-being of children with a chronic physical condition. *Families, Systems, & Health, 36*(1), 45–61. <https://doi.org/10.1037/fsh0000305>
- Crichton, A., Knight, S., Oakley, E., Babl, F. E., & Anderson, V. (2015). Fatigue in child chronic health conditions: A systematic review of assessment instruments. *Pediatrics, 135*(4), 1015–1031. <https://doi.org/10.1542/peds.2014-2440>
- Crombez, G., Bijttebier, P., Eccleston, C., Mascagni, T., Mertens, G., Goubert, L., & Verstraeten, K. (2003). The child version of the pain catastrophizing scale (PCS-C): a preliminary validation. *Pain, 104*(3), 639–646. [https://doi.org/10.1016/s0304-3959\(03\)00121-0](https://doi.org/10.1016/s0304-3959(03)00121-0)
- De Los Reyes, A. (2011). Introduction to the special section: More than measurement error: Discovering meaning behind informant discrepancies in clinical assessments of

- children and adolescents. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 40(1), 1–9. <https://doi.org/10.1080/15374416.2011.533405>
- Friedberg, F., & Sohl, S. J. (2008). Memory for fatigue in chronic fatigue syndrome: The relation between weekly recall and momentary ratings. *International Journal of Behavioral Medicine*, 15(1), 29–33. <https://doi.org/10.1007/bf03003071>
- Gaultney, A., Bromberg, M., Connelly, M., Spears, T., & Schanberg, L. (2017). Parent and child report of pain and fatigue in JIA: Does disagreement between parent and child predict functional outcomes? *Children*, 4(2). <https://doi.org/10.3390/children4020011>
- Hartgers, M. (2004). Samen leven: chronische ziekte en het gezin als systeem. In G. Jonker-Pool, F. Heuvel, A. Ranchor, & R. Sanderman (Eds.), *Handboek psychologische interventies bij chronisch-somatische aandoeningen* (pp. 197–207). Koninklijke Van Gorcum.
- Haverman, L., Van Oers, H. A., Limperg, P. F., Houtzager, B. A., Huisman, J., Darlington, A. S., Maurice-Stam, H., & Grootenhuis, M. A. (2013). Development and Validation of the Distress Thermometer for Parents of a Chronically Ill Child. *The Journal of Pediatrics*, 163(4), 1140–1146.e2. <https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2013.06.011>
- Hendriks, L. (2016, 30 september). *Psycholoog Lidewy Hendriks over draaglast en draagkracht bij stress* [Video]. MIND. <https://www.youtube.com/watch?v=zvMy9UAyYEW>
- Kish, A. M., Newcombe, P. A., & Haslam, D. M. (2018). Working and caring for a child with chronic illness: A review of current literature. *Child: Care, Health and Development*, 44(3), 343–354. <https://doi.org/10.1111/cch.12546>
- Kuyk, M., & Sinnema, G. (2012). Lichamelijke klachten en aandoeningen bij kinderen en adolescenten. In A. Kaptein, J. Dekker, E. Smets, & A. Vingerhoets (Eds.), *Psychologie en geneeskunde* (pp. 253–267). Bohn Stafleu van Loghum, Houten. [https://doi.org/10.1007/978-90-313-9890-4\\_17](https://doi.org/10.1007/978-90-313-9890-4_17)
- Leeman, J., Crandell, J. L., Lee, A., Bai, J., Sandelowski, M., & Knafl, K. (2016). Family Functioning and the Well-Being of Children With Chronic Conditions: A Meta-

- Analysis. *Research in Nursing & Health*, 39(4), 229–243.  
<https://doi.org/10.1002/nur.21725>
- Maurice-Stam, H., Nijhof, S. L., Monninkhof, A. S., Heymans, H. S. A., & Grootenhuis, M. A. (2019). Review about the impact of growing up with a chronic disease showed delays achieving psychosocial milestones. *Acta Paediatrica*, 108(12), 2157–2169.  
<https://doi.org/10.1111/apa.14918>
- May, M., Junghaenel, D. U., Ono, M., Stone, A. A., & Schneider, S. (2018). Ecological Momentary Assessment methodology in chronic pain research: A systematic review. *The Journal of Pain*, 19(7), 699–716.  
<https://doi.org/10.1016/j.jpain.2018.01.006>
- Nap-van Der Vlist, M. M., Dalmeijer, G. W., Grootenhuis, M. A., Van der Ent, C. K., Van den Heuvel-Eibrink, M. M., Wulffraat, N. M., Swart, J. F., Van Litsenburg, R. R. L., Van de Putte, E. M., & Nijhof, S. L. (2019). Fatigue in childhood chronic disease. *Archives of Disease in Childhood*, 104(11), 1090–1095.  
<https://doi.org/10.1136/archdischild-2019-316782>
- Nederlands Jeugdinstituut. (2021, 8 juni). *Cijfers over welbevinden | Nederlands Jeugdinstituut*. Geraadpleegd op 5 november 2021, van  
<https://www.nji.nl/cijfers/welbevinden#definitie>
- Nijhof, L. N., Van de Putte, E. M., Wulffraat, N. M., & Nijhof, S. L. (2015). Prevalence of severe fatigue among adolescents with pediatric rheumatic diseases. *Arthritis Care & Research*, 68(1), 108–114. <https://doi.org/10.1002/acr.22710>
- Padilla, G. V., Presant, C., Grant, M. M., Metter, G., Lipsett, J., & Heide, F. (1983). Quality of life index for patients with cancer. *Research in Nursing & Health*, 6, 117–126.
- Perrin, J. M., Bloom, S. R., & Gortmaker, S. L. (2007). The Increase of Childhood Chronic Conditions in the United States. *The Increase of Childhood Chronic Conditions in the United States*, 297(24), 2755–2759. <https://doi.org/10.1001/jama.297.24.2755>
- Queen, T. L., Butner, J., Wiebe, D. J., & Berg, C. A. (2016). A micro-developmental view of parental well-being in families coping with chronic illness. *Journal of Family Psychology*, 30(7), 843–853. <https://doi.org/10.1037/fam0000201>

- Schepers, S. A., Van Oers, H. A., Maurice-Stam, H., Huisman, J., Verhaak, C. M., Grootenhuis, M. A., & Haverman, L. (2017). Health related quality of life in Dutch infants, toddlers, and young children. *Health and Quality of Life Outcomes, 15*(1). <https://doi.org/10.1186/s12955-017-0654-4>
- Shiffman, S., Stone, A. A., & Hufford, M. R. (2008). Ecological Momentary Assessment. *Annual Review of Clinical Psychology, 4*(1), 1–32. <https://doi.org/10.1146/annurev.clinpsy.3.022806.091415>
- Silva, N., Pereira, M., Otto, C., Ravens-Sieberer, U., Canavarro, M. C., & Bullinger, M. (2019). Do 8- to 18-year-old children/adolescents with chronic physical health conditions have worse health-related quality of life than their healthy peers? a meta-analysis of studies using the KIDSCREEN questionnaires. *Quality of Life Research, 28*(7), 1725–1750. <https://doi.org/10.1007/s11136-019-02189-7>
- Sixsmith, J., Nic Gabhainn, S., Fleming, C., & O'Higgins, S. (2007). Childrens', parents' and teachers' perceptions of child wellbeing. *Health Education, 107*(6), 511–523. <https://doi.org/10.1108/09654280710827911>
- Sullivan, M. J. L., Bishop, S. R., & Pivik, J. (1995). The Pain Catastrophizing Scale: Development and validation. *Psychological Assessment, 7*(4), 524–532. <https://doi.org/10.1037/1040-3590.7.4.524>
- Toledano-Toledano, F., & Domínguez-Guedea, M. T. (2019). Psychosocial factors related with caregiver burden among families of children with chronic conditions. *BioPsychoSocial Medicine, 13*(6). <https://doi.org/10.1186/s13030-019-0147-2>
- Trawicka, A., Lewandowska-Walter, A., Bogdanowicz, M., Woźniak-Mielczarek, L., Janikowska-Hołoweńko, D., & Bilicka-Siewert, M. (2019). Internalizing and externalizing behaviors in chronically ill adolescents in the context of family system functioning. *Health Psychology Report, 7*(3), 213–228. <https://doi.org/10.5114/hpr.2019.87934>

- UMCG. (2017, 7 juni). *Ziek en gezond zijn tegelijk: het kan!* Geraadpleegd op 4 november 2021, van [https://www.umcg.nl/NL/UMCG/healthy\\_ageing/Healthy-Ageing-bij-ziekte/Paginas/Ziek-en-gezond-zijn-tegelijk-het-kan.aspx](https://www.umcg.nl/NL/UMCG/healthy_ageing/Healthy-Ageing-bij-ziekte/Paginas/Ziek-en-gezond-zijn-tegelijk-het-kan.aspx)
- Van der Vlist, M. M., Hoefnagels, J. W., Dalmeijer, G. W., Moopen, N., Van der Ent, C. K., Swart, J. F., Van de Putte, E. M., & Nijhof, S. L. (2021). The PROactive Cohort Study: Rationale, Design, and Study Procedures. *ResearchGate*.  
<https://doi.org/10.21203/rs.3.rs-1008731/v1>
- Van Keulen, A., & Singer, E. (2017). Ouders ondersteunen bij het in balans blijven [E-book]. In *Samen verschillend* (2de editie, pp. 85–104). Bohn Stafleu van Loghum.
- Van Oers, H. A., Schepers, S. A., Grootenhuis, M. A., & Haverman, L. (2016). Dutch normative data and psychometric properties for the Distress Thermometer for Parents. *Quality of Life Research*, 26(1), 177–182. <https://doi.org/10.1007/s11136-016-1405-4>
- Varni, J. W., Seid, M., & Rode, C. A. (1999). The PedsQL™: Measurement Model for the Pediatric Quality of Life Inventory. *Medical Care*, 37(2), 126–139.  
<https://doi.org/10.1097/00005650-199902000-00003>
- Vercoulen, J. H. M. M., Alberts, M., & Bleijenberg, G. (1999). De Checklist Individual Strength (CIS). *Gedragstherapie*, 32, 131–136.
- Vercoulen, J. H., Swanink, C. M., Fennis, J. F., Galama, J. M., Van der Meer, J. W., & Bleijenberg, G. (1994). Dimensional assessment of chronic fatigue syndrome. *Journal of Psychosomatic Research*, 38(5), 383–392. [https://doi.org/10.1016/0022-3999\(94\)90099-x](https://doi.org/10.1016/0022-3999(94)90099-x)
- Verwey-Jonker Instituut. (2019). *Een actueel perspectief op kinderen en jongeren met een chronische aandoening in Nederland*. Geraadpleegd op 14 oktober 2021, van <https://www.verwey-jonker.nl/publicatie/een-actueel-perspectief-op-kinderen-en-jongeren-met-een-chronische-aandoening-in-nederland-omvang-samenstelling-en-participatie/>



- V&VN. (2018, juni). *Diagnostiek – pijnmeetinstrumenten*.  
<https://www.venvn.nl/media/lxhcp1ob/vvnp-sig-kinderen-diagnostiek-pijnmeetinstrumenten-030418.pdf>
- Waterfield, J., & Sim, J. (1996). Clinical assessment of pain by the visual analogue scale. *British Journal of Therapy and Rehabilitation*, 3(2), 94–97.  
<https://doi.org/10.12968/bjtr.1996.3.2.14869>
- Weems, C. F., Taylor, L. K., Marks, A. B., & Varela, R. E. (2008). Anxiety sensitivity in childhood and adolescence: Parent reports and factors that influence associations with child reports. *Cognitive Therapy and Research*, 34(4), 303–315.  
<https://doi.org/10.1007/s10608-008-9222-x>
- Wise, P. H. (2007). The Future Pediatrician: The Challenge of Chronic Illness. *The Journal of Pediatrics*, 151(5), 6–10. <https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2007.08.013>
- Zan, H., & Scharff, R. L. (2014). The heterogeneity in financial and time burden of caregiving to children with chronic conditions. *Maternal and Child Health Journal*, 19(3), 615–625. <https://doi.org/10.1007/s10995-014-1547-3>