



Universiteit  
Leiden  
The Netherlands

## Music therapy in Huntington's disease

Bruggen-Rufi, C.H.M. van

### Citation

Bruggen-Rufi, C. H. M. van. (2018, January 11). *Music therapy in Huntington's disease*. Retrieved from <https://hdl.handle.net/1887/58922>

Version: Not Applicable (or Unknown)

License: [Licence agreement concerning inclusion of doctoral thesis in the Institutional Repository of the University of Leiden](#)

Downloaded from: <https://hdl.handle.net/1887/58922>

**Note:** To cite this publication please use the final published version (if applicable).

Cover Page



Universiteit Leiden



The handle <http://hdl.handle.net/1887/58922> holds various files of this Leiden University dissertation.

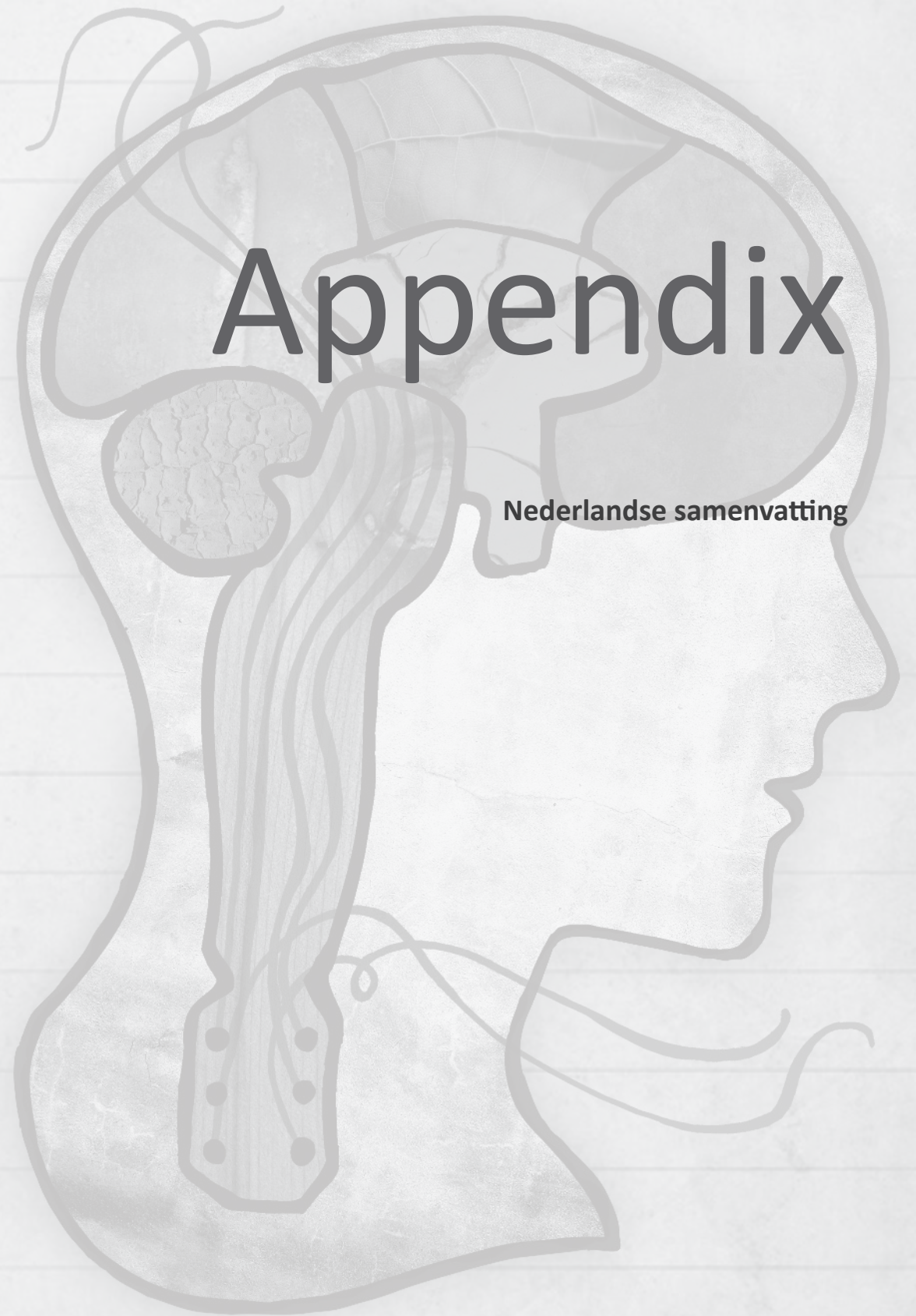
**Author:** Bruggen-Rufi, C.H.M. van

**Title:** Music therapy in Huntington's disease

**Issue Date:** 2018-01-11

# Appendix

Nederlandse samenvatting



## Nederlandse samenvatting

De Ziekte van Huntington (ZvH) is een aangeboren, erfelijke, progressieve, neurodegeneratieve aandoening die wordt gekenmerkt door motorische, cognitieve en psychiatrische problematiek. De motorische beperkingen bestaan voornamelijk uit ongewilde bewegingen. De cognitieve veranderingen hebben voornamelijk betrekking op concentratie, geheugen, executieve functies, en het verwerven van nieuwe informatie. Emotionele stoornissen dienen zich vaak al voor de motorische en cognitieve problemen aan. Depressie, irritatie, impulsiviteit en angst zijn veel voorkomende symptomen [1-3].

Als gevolg van de fysieke en cognitieve achteruitgang gaan ook de communicatieve vaardigheden achteruit. Een soms snelle achteruitgang van deelname in het alledaagse leven en het kunnen omgaan met situaties die bij het leven horen is hier weer het gevolg van [4]. De zelfstandigheid van de patiënt komt hiermee in het gedrang, hetgeen vaak leidt tot een toename van gedragsproblemen. Zo vermindert de kwaliteit van leven (KvL) naarmate de ziekte vordert. Zolang er nog geen genezing voor de ziekte is, ligt de nadruk op de zorg (*care versus cure*) voor patiënten met de ZvH, met als specifieke doel het in stand houden en verbeteren van de kwaliteit van leven [4].

Muziektherapie is een niet-medicamenteuze interventie die mogelijk gunstige effecten heeft op het verbeteren van de communicatieve en expressieve vaardigheden voor patiënten met de ZvH. Verondersteld wordt, dat verbetering van genoemde vaardigheden zal leiden tot verbetering van het gedrag, hetgeen weer leidt tot algehele verbetering van de KvL van patiënten met de ZvH [5].

De algemene doelstelling van dit proefschrift was om te bepalen of deze veronderstelling bevestigd kan worden middels het uitvoeren van een experimenteel kwantitatief onderzoek. De eerste doelstelling was om middels een literatuuronderzoek te achterhalen wat de stand van zaken is m.b.t. kennis van muziektherapie voor patiënten met de ZvH (**Hoofdstuk 2**). Dit onderzoek bracht een schaarste aan het licht over genoemd onderwerp. De meeste artikelen betreffen kleinschalige, observationele studies. Doelstellingen en in te zetten methodieken in relatie tot de verschillende stadia van de ziekte zijn in deze artikelen niet nauwkeurig omschreven. Deze conclusie bevestigde onze aanname dat een onderzoek naar de effectiviteit van muziektherapie bij deze patiëntenpopulatie nodig is.

Vervolgens voerden we een focusgroep-studie uit om te onderzoeken of zes Huntington-ervaringsdeskundigen vanuit verschillende klinische disciplines een mogelijke waardevolle rol voor de muziektherapeut weggelegd zagen om de KvL van patiënten met de ZvH te verbeteren.

Uit de resultaten van deze studie, beschreven in **hoofdstuk 3**, komt naar voren dat psychosociale aspecten de KvL het meest beïnvloeden. Gevoel van veiligheid, vertrouwen en structuur waren de kwalificaties die het meest genoemd werden. De focusgroep-deelnemers waren van mening dat muziektherapie een belangrijke rol kan spelen in de behandeling van patiënten met de ZvH wanneer het vermogen om te communiceren en zichzelf uit te drukken minder wordt naarmate de ziekte vordert.

De in hoofdstuk 2 en 3 beschreven inzichten vanuit de literatuur en van de focusgroep-deelnemers werden vervolgens gebruikt om een experimenteel onderzoek naar de effecten van muziektherapie op te zetten. Het hoofddoel van dit onderzoek was het verbeteren van de KvL van patiënten met de ZvH door het verbeteren van communicatieve vaardigheden. We ontwikkelden een gerandomiseerd, gecontroleerd onderzoeksdesign (randomized controlled trial=RCT). Dit was de eerste RCT waarbij muziektherapie met een groot aantal patiënten in het gevorderde stadium van de ZvH werd uitgevoerd. Het design van deze studie wordt beschreven in **hoofdstuk 4**.

De resultaten van deze enkelvoudig-geblindeerde, multicenter RCT staan beschreven in **hoofdstuk 5**. Drieënzestig patiënten verblijvend in vier verschillende verpleeghuizen voor langdurige zorg in Nederland, allen gespecialiseerd in de zorg voor patiënten met de ZvH, werden middels randomisatie aan de interventiegroep (muziektherapie) of aan de controlegroep (activiteitenbegeleiding) toegewezen. Beide groepen hadden 16 maal een wekelijkse sessie. De primaire uitkomstmaat waren de communicatieve- en expressieve vaardigheden. De secundaire uitkomstmaat was het probleemgedrag. Metingen vonden plaats op baseline en vervolgens na 8, 16 en 28 weken. Hierbij werd gebruik gemaakt van de Gedrags Observatie Schaal voor Huntington (GOSH) [6] en de Problem Behaviours Assessment-short meetschaal (P-BA-s) [7]. Om de scores van de twee groepen met elkaar te vergelijken werd gebruik gemaakt van een statistische techniek volgens het “linear mixed model with repeated measures”-model.

De gunstige effecten van muziektherapie, zoals gerapporteerd in vele kwalitatieve onderzoeken en case-reports, konden met de door ons gekozen uitkomstmaten en meetinstrumenten niet bevestigd worden.

Tegelijkertijd bereidden we een uitgebreide procesevaluatie voor om te onderzoeken hoe de RCT was uitgevoerd en om hiermee de resultaten van de studie tegen het licht te houden. Deze evaluatie, beschreven in **hoofdstuk 6**, bracht verschillende struikelblokken en beperkingen van de studie aan het licht. Deze beperkingen betroffen (1) de karakteristieken van de onderzoekspopulatie, (2) de studie-methode en de uitkomstmaten, en (3) de behandeldoelen. In de onderstaande discussie wordt hierop ingegaan en worden aanbevelingen voor de praktijk en toekomstige studies gedaan.

Vanwege de kwetsbaarheid van de onderzoekspopulatie was de patiënt zelf in geen van de hiervoor genoemde kwalitatieve onderzoeken (focusgroep en procesevaluatie) direct betrokken. Om die reden hebben we in **hoofdstuk 7** in een case-report twee patiënten beschreven waarbij muziektherapie succesvol wordt ingezet. De patiënt krijgt een stem en een gezicht. Tegelijkertijd wordt een inkijk gegeven in de dagelijkse praktijk van de muziektherapeut.

### Onderzoeksopzet

Wanneer de effectiviteit van interventies in de gezondheidszorg moeten worden geëvalueerd, wordt de RCT in het algemeen beschouwd als de “gouden standaard”.

Dit is het eerste onderzoek naar de effecten van muziektherapie bij patiënten in het gevorderde stadium van de ZvH. In veel RCT's wordt de interventie vergeleken met een controlegroep waarin geen interventie wordt aangeboden of waarbij de interventie wordt vergeleken met de standaard aangeboden zorg. In deze studie kreeg de controlegroep activiteitenbegeleiding aangeboden onder dezelfde omstandigheden en volgens hetzelfde protocol als de muziektherapiegroep.

Uit de procesevaluatie die werd uitgevoerd kwamen de volgende beperkingen naar voren:

1. Door de klinische verscheidenheid van de ZvH en de karakteristieken van de onderzoekspopulatie is het aannemelijk dat, ondanks randomisatie, geen evenredige verdeling van versturende variabelen (confounders) tussen de beide groepen werd bereikt [9].
2. Omdat de studie plaats vond in vier verschillende zorginstellingen hebben we besloten om een gestratificeerde gepermuteerde blok-randomisatie uit te voeren, waarbij elke deelnemende zorginstelling een apart stratum vormde. Hiermee beoogden we verschillen tussen de centra onderling te voorkomen [10].

De groepsgrootte van minimaal drie en maximaal vijf werd bepaald op basis van de haalbaarheid en de bereidwilligheid van de patiënt om deel te nemen. De cognitieve achteruitgang, de sterk fluctuerende fysieke en emotionele reactie op de behandeling en de diverse demografische, psychosociale en muzikale achtergrond van de patiënt waren hierin leidend.

3. De vooropgestelde behandeldoelen (verbetering van de communicatieve en expressieve vaardigheden) waren dezelfde voor alle deelnemende patiënten.
4. Er zijn aanwijzingen dat de gebruikte meetinstrumenten niet sensitief genoeg waren om veranderingen te detecteren in de primaire en secundaire uitkomstmaten (communicatieve en expressieve vaardigheden en gedrag).
5. Onderstaand volgt een gedetailleerde uitweiding over de bovengenoemde beperkingen.

In de definitie van muziektherapie van de American Music Therapy Association (AMTA) [4,5] staat expliciet geschreven dat behandeldoelen moeten worden toegespitst op het individu, daarbij rekening houdend met en aangepast aan de vermogens van dit individu. De keuze van dezelfde behandeldoelen en uitkomstmaten voor elke deelnemende patiënt conflicteert met deze definitie.

De uitkomstmaten werden gekozen op basis van de aanname dat verbetering van communicatieve en expressieve vaardigheden van de patiënt leidt tot verandering van het gedrag, hetgeen uiteindelijk leidt tot verbetering van de KvL [5].

De keuze van de GOSH en de PBA-s als meetinstrumenten was gebaseerd op de verwachting dat de items van deze instrumenten veranderingen in de gekozen uitkomstmaten zouden kunnen detecteren [8]. De assessoren die deelnamen aan de procesevaluatie waren echter van mening dat dit, gezien de (vaak slechte) cognitieve staat waarin de patiënten verkeerden, niet het geval was [11]. Deze mening is in overeenstemming met wat in de literatuur staat beschreven over de GOSH en de PBA-s [6,12]. Daarnaast was bij de onderzoekspopulatie een hoog bodem-effect te verwachten [13].

Er is een tekort aan ziekte-specifieke gestandaardiseerde meetinstrumenten om consistente en betrouwbare informatie betreffende de klinische effecten van interventies van de ziekte te verzamelen. Dit gegeven reflecteert wellicht de schaarste aan experimentele studies naar de effecten van niet-medicamenteuze interventies bij patiënten met de ZvH [12].

Van het huidige meetinstrument dat wordt gebruikt voor klinische evaluaties, de Unified Huntington's Disease Rating Scale (UHDRS), wordt verondersteld dat deze de gevoeligheid mist voor de marginale klinische effecten, met name op het gebied van cognitieve en psychiatrische symptomen in het vergevorderde stadium van de ziekte [14]. Als antwoord hierop werd in 2013 een nieuwe meetschaal ontwikkeld die gevoeliger lijkt te zijn voor veranderingen binnen de cognitieve en motorische domeinen. Deze nieuwe schaal, de UHDRS-FAP (For Advanced Patients) is de enige schaal die achteruitgang detecteert bij patiënten met een TFC (Total Functional Capacity)-score  $\leq 1$ , hetgeen duidt op een zeer lage cognitieve functionaliteit. Het instrument was nog niet gevalideerd ten tijde van het ontwerpen en uitvoeren van de onderhavige studie.

Recent werd een ziekte-specifiek meetinstrument voor muziektherapie ontwikkeld voor patiënten in het gevorderde stadium van de ZvH: de Music therapy Assessment Tool for Advanced HD (MATA-HD) [12]. Of er een relatie bestaat tussen het muzikaal gedrag en de muzikale gevoeligheid van patiënten in het vergevorderde stadium van de ZvH en eigenschappen op het fysieke, psychologische en sociale vlak, heeft men tot op heden nog niet kunnen aantonen [12]. Een meetinstrument als de MATA-HD dat zowel muzikaal als niet muzikaal gedrag in kaart kan brengen, kan de oplossing zijn om een dergelijke relatie aan te tonen. De voorlopige resultaten geven aanwijzingen dat de MATA-HD een veelbelovend instrument is om de reacties van patiënten in het gevorderd stadium van de ZvH op muziektherapie-interventies te meten, en om aan de hand hiervan een uitspraak te kunnen doen omtrent het functioneren op psychologisch, fysiek, sociaal en communicatief vlak. De MATA-HD, die in de nabije toekomst nog gevalideerd moet worden (zie ook "future perspectives"), was nog niet beschikbaar ten tijde van het ontwerpen en uitvoeren van de onderhavige studie.

Conform de hiervoor genoemde definitie van muziektherapie is het wenselijk om de uitkomstmaten af stemmen op de individuele doelen. Daarnaast bemoeilijkt het bodemeffect bij patiënten in het gevorderde stadium van de ZvH van de genoemde meetinstrumenten deze te evalueren.

In dit licht bezien is de Goal Attainment Scale (GAS) [15] een geschikt meetinstrument: de GAS maakt gebruik van een mathematische techniek die het bereiken van individuele doelen, die voor elk persoon die deelneemt in het onderzoek zijn vastgesteld, kwantificeert [16]. Hierbij moet opgemerkt worden dat het vaststellen van individuele doelen uiterst moeizaam kan zijn voor patiënten met de ZvH gezien het slecht ziekte-inzicht en het feit dat ze zich niet bewust zijn van hun conditie als gevolg van de cognitieve achteruitgang [5].

### Verbetering van de onderzoeksopzet

De dialoog aangaande de klinische effectiviteit van muziektherapie moet niet gedomineerd worden door het biomedische hiërarchische model van de Evidence Based Practice (EBP). Volgens Bradt [16] is het mogelijk een strikte RCT te ontwikkelen die een accurate inschatting maakt van de voordelen van de muziek-therapeutische behandeling, mits aan bepaalde condities en aanpassingen wordt voldaan. Hoe complex de interventie en de onderzoekspopulatie ook is, met een eenduidig protocol, zorgvuldig gekozen uitkomstmaten en meetinstrumenten en een voortdurende evaluatie en monitoring gedurende het hele onderzoek kunnen struikelblokken worden voorkomen, en kunnen facilitatoren worden verbeterd [16].

Verschillende onderzoeksvragen vergen verschillende types onderzoeksmethodieken en evidentie [16]. Experimentele studies met kwantitatieve uitkomsten blijven belangrijk voor klinici en beleidsmakers. Echter, de kwantitatieve uitkomsten alleen geven onvoldoende informatie om tot een goede inschatting te komen van de effecten van een complexe interventie en om te bepalen welke uitwerking deze effecten hebben op de patiënt.

Wanneer men een complexe interventie ontwikkelt, is het belangrijk om met de context en de omstandigheden waarin de interventie wordt uitgevoerd rekening te houden. Vaak is observationeel of kwalitatief onderzoek voorafgaande aan de RCT noodzakelijk om duidelijk in kaart te brengen welke aspecten van de problemen relevant adequaat zijn om de doelen te bereiken [17].

Deze adviezen zijn in de huidige studie grotendeels opgevolgd: voorafgaand aan de RCT werd een uitgebreide literatuurstudie uitgevoerd [4], gevolgd door een kwalitatieve focusgroep-studie [5]. Aansluitend aan de RCT werd een procesevaluatie uitgevoerd, waarbij gebruik werd gemaakt van een combinatie van zowel kwalitatieve als kwantitatieve onderzoeksgegevens [11]. Aanbevelingen voor verbeteringen of aanpassingen voor de klinische praktijk en toekomstige onderzoeken volgen hieronder.

### Toekomstperspectieven

De volgende mogelijkheden kunnen in overweging genomen worden om struikelblokken en beperkingen die in de huidige studie werden tegengekomen, te voorkomen.

- Uitvoeren van een pilotstudie of haalbaarheidsstudie [16]: in een pilotstudie kunnen kwesties als werving en selectie, uitval en therapietrouw van de deelnemers verkend worden. Tevens kunnen voorlopige gegevens over doeltreffendheid van de interventie

worden verkregen. Tijdens deze pilotfase worden het behandelplan, het protocol, en eventuele trainingsschema's ontwikkeld.

- Individuele therapie sessies: de zorg voor kwetsbare patiënten met de ZvH vraagt om een individuele benadering om aan de complexe behoeftes van deze patiënten tegemoet te komen. Om de geplande interventie-componenten te kunnen aanbieden verdient individuele therapie de voorkeur boven groepstherapie gezien de onderling vaak grote verschillen in cognitieve staat van de patiënten.
- Meetinstrumenten: de kracht van muziektherapie ligt in het feit dat de sessies op maat gesneden kunnen worden om daarmee de individueel opgezette doelen van elke patiënt te behalen [4,5]. Het gebruik van het hiervoor genoemde GAS meetinstrument [15] om deze doelen te bepalen is aan te bevelen. Een mogelijk ander goed alternatief voor toekomstig onderzoek is het gebruik (na validatie) van de eveneens hiervoor genoemde MATA-HD [12] en de UHDRS-FAP [14].
- Het ontwerpen van multi-pele n=1 studies; dit is een ontwerp dat vaak wordt gebruikt in bepaalde vakgebieden binnen de psychologie en gedragswetenschappen waarin het subject zijn eigen controle is in plaats van een ander individu. Dit soort onderzoek is uiterst flexibel en benadrukt de individuele verschillen in reacties op interventie-effecten op verschillende domeinen [18]. Met n=1 studies doorgrond je het veranderingsproces van patiënten met betrekking tot de complexiteit van muziektherapie [19].
- Het betrekken van mantelzorgers: in toekomstige studies is de overweging om familieleden en mantelzorgers in het onderzoek te betrekken de moeite waard, omdat dit de communicatie tussen hen en de patiënt ook buiten de muziektherapie-sessies ten goede komt. Dit is niet alleen een uiterst wenselijk resultaat dat ongetwijfeld leidt tot verbetering van de KVL voor zowel de patiënt maar ook de mantelzorger [5], maar ook zal de inbreng van zowel de patiënt als de mantelzorger een waardevolle bron zijn om toekomstige klinische studies richting te helpen geven [20].

De gunstige effecten van muziektherapie voor patiënten met de ZvH konden in het onderhavige onderzoek niet aangetoond worden middels het design en de gebruikte uitkomstmaten [8].

Dit impliceert dat ofwel muziektherapie niet effectief is, of de gekozen uitkomstmaten (communicatieve en expressieve vaardigheden en probleemgedrag) zijn niet geschikt om de effectiviteit aan te tonen. Ondanks de complexiteit van zowel de onderzoekspopulatie alsook de interventie, is het haalbaar om een RCT uit te voeren. Om de effectiviteit van de interventie te kunnen aantonen moet de RCT worden voorafgegaan, vergezeld of aangevuld door andere observationele of kwalitatieve studies en moeten de meest geschikte en beschikbare uitkomstmaten en meetinstrumenten worden gebruikt.

## Conclusie

Wanneer de effectiviteit van interventies die de potentie hebben om de KVL te verbeteren geëvalueerd moet worden, is het vinden van de meest geschikte onderzoeksopzet en uitkomstmaten een hele uitdaging. Voor de muziektherapie-onderzoeker ligt deze uitdaging vooral in het vinden van alternatieve studieontwerpen en in het leren vanuit ervaringen van andere onderzoeken waar complexe interventies bij gemoeid waren. Dit vergt van het multidisciplinaire team rondom de patiënt met de ZvH de bereidwilligheid om te leren, samen te werken en om creatief te zijn [17].

In een poging om een bijdrage te leveren aan de evidentie van muziektherapie en uitgaande van de hiervoor genoemde aanname dat deze methodiek wordt beschouwd als de gouden standaard wanneer de effectiviteit van gezondheidszorg-interventies aangetoond moet worden, hebben we gekozen voor de RCT-methodiek in het onderhavige onderzoek. Gebleken is dat het uitvoeren van een multi-center RCT naar de effecten van muziektherapie bij kwetsbare patiënten die in een faciliteit voor langdurige zorg verblijven haalbaar maar zeer uitdagend is.

Echter, in de alledaagse praktijk van de muziektherapeut worden de strikte regels die gelden voor de RCT, waar de te onderzoeken interventie gestandaardiseerd moet worden om de experimentele groep met de controlegroep te kunnen vergelijken, beschouwd als hindernissen die moeten worden genomen [9,21]. Deze strikte regels conflicteren met wat er in de definitie van muziektherapie staat geschreven, namelijk dat behandeldoelen moeten worden aangepast aan het functieniveau van de patiënt teneinde deze individuele doelen te kunnen behalen. De toegevoegde waarde van muziektherapie is dat de interventie kan worden aangepast aan de individuele behoeftes en mogelijkheden van de patiënt. De geïndividualiseerde wijze waarop muziektherapie ingrijpt op elk patiënt is wat de therapie effectief maakt. Het is daarom niet

de *inhoud* die gestandaardiseerd zou moeten worden, maar de *functie* van de interventie. Zodoende staat het de therapeut vrij om elke denkbare techniek of methode volgens een gestandaardiseerd protocol te integreren teneinde specifieke doelen te bereiken [9,21].



## References:

- [1] Bates, G., Harper, P.S., & Jones, L. (2002). Huntington's Disease. Oxford: University Press.
- [2] Roos, R.A.C. (2010). Huntington's disease: a clinical review. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 5:40.
- [3] Hartelius, L., Jonsson, M., Rickeberg, A., & Laakso, K. (2010). Communication and Huntington's disease: qualitative interviews and focus groups with persons with Huntington's disease, family members, and carers. *Int.J.Lang. Comm.Dis.*, 45(3), 381 – 393.
- [4] Bruggen-Rufi van, C.H.M., Roos, R.A.C. (2015). The effect of music therapy for patients with Huntington's Disease: a systematic literature review. *Journal of literature and art studies*. David Publishing, 5(1),30-40. DOI: 10.17265/2159-5836/2015.01.005m.
- [5] Bruggen-Rufi van, C.H.M., Vink, A.C., Achterberg, W.P., & Roos, R.A.C. (2017). Improving quality of life in patients with Huntington's disease through music therapy: a qualitative explorative study using focus group discussions. *Nordic Journal of Music Therapy*, <http://dx.doi.org/10.1080/08098131.2017.1284888>.
- [6] Timman, R., Claus, H., Slingerland, H., Schalk van der, M., Demeulenaere, S., & Roos, R.A.C., & Tibben, A. (2005). Nature and development of Huntington Disease in a nursing home population: the Behavior Observation Scale Huntington (BOSH). *Cog Behav Neurol* 18 (4), 215-222.
- [7] Kingma, E.M., Duijn van, E., Timman, R., Mast van der, R.C., & Roos, R.A.C. (2008). Behavioural problems in Huntington's disease using the Problem Behaviours Assessment. *Gen Hospital Psychiatry* 30: 155-161.
- [8] Bruggen-Rufi van, C.H.M., Vink, A.C., Wolterbeek, R., Achterberg, W.P., & Roos R.A.C. (2017). The effect of music therapy for Huntington's disease patients: a randomized controlled trial. *Journal of Huntington's disease*. *Journal of Huntington's disease* 6(63-72, DOI 10-2322/JHD-160229.
- [9] Edwards, J. (2005). Possibilities and problems for evidence-based practice in music therapy. *The Arts in Psychotherapy* 32,293-301.
- [10] Bruggen-Rufi van, C.H.M., Vink A.C., Achterberg W.P., & Roos R.A.C. (2016). Music therapy in Huntington's disease: a protocol for a multi-center randomized controlled trial. *BMC Psychologie* 4:38, DOI 10.1186/s40359-016-0146-z.
- [11] Bruggen-Rufi van, C.H.M., Hogenboom M., Vink A.C., Achterberg W.P., & Roos R.A.C. (2017). Process Evaluation of a Randomized Controlled Trial Studying the effect of music therapy in patients with Huntington's Disease. *Journal of Memory Disorders and Rehabilitation* 2(1): 1005.
- [12] Kelly O', J., Bodak, R. (2016). Development of the Music Therapy Assessment Tool for Advanced Huntington's Disease: a pilot validation study. *Journal of Music Therapy*, 53(3), 232-256.
- [13] McNally, G., Rickards, H., Horton, M. & Craufurd, D. (2015). Exploring the Validity of the Short Version of the Problem Behaviours Assessment (PBA-s) for Huntington's disease: A Rasch Analysis. *Journal of Huntington's disease*, 4 (4), 347-369. ISSN 1879-6397.
- [14] Youssov, K., Dolbeau, G., Maison, P., Boissé, M.F., Cleret de Langavant, L., Roos, R.A.C., & Bachoud-Lévi, A.C. (2013). Unified Huntington's disease rating scale for advanced patients validation and follow-up study. *Movement Disorders*, 28(12), 171-1723.
- [15] Turner-Stokes, L. (2009). Goal Attainment Scaling (GAS) in Rehabilitation: a practical guide. *Clin Rehabil.* 2009 Apr;23(4):362-70. Doi: 10.1177/0269215508101742. Epub 2009 Jan 29. Erratum in *Clin Rehabil.* 2010 Feb;24(2)191.
- [16] Bradt, J. (2012). Randomized Controlled Trials in Music Therapy: Guidelines for Design and Implementation. *Journal of Music Therapy*, 49(2), 120-149.
- [17] Koffeman, A.R., (2016). Complexe interventies bij ouderen: hoe bepaal je het effect? (*Complexe interventions with elderly: how to evaluate the effectiveness?*). *Ned Tijdschr Geneesk.*,160:D816.
- [18] Thompson, C.K. (1986). Flexibility of Single-subject Experimental Designs. Part III: Using Flexibility to Design or Modify Experiments. *The Journal of Speech and Hearing Disorders*, 51(3), 214-25.
- [19] Hillecke, T., Nickel, A., Bolay, H.V. (2005). Scientific Perspectives on Music Therapy. *Ann. N.Y. Acad. Sci.* 1060:271-282. DOI: 10.1196/annals.1360.020.
- [20] Simpson, J.A., Lovecky, D., Kogan, J., Vetter, L.A., Yohrling, G.J. (2016). Survey of the Huntington's Disease Patient and Caregiver Community Reveals Most Impactful Symptoms and Treatment Needs. *Journal of Huntington's Disease* 5, 395-403. DOI 10.3233/JHD-160228.
- [21] Aigen, K. (2015). A critique of evidence-based practice in music therapy. *Music Therapy Perspectives*, 33(1), 12-24.