



Universiteit
Leiden
The Netherlands

Neonatal brachial plexus palsy : impact throughout the lifespan

Holst, M. van der

Citation

Holst, M. van der. (2017, December 20). *Neonatal brachial plexus palsy : impact throughout the lifespan*. Retrieved from <https://hdl.handle.net/1887/58104>

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/1887/58104>

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

Cover Page



Universiteit Leiden



The handle <http://hdl.handle.net/1887/58104> holds various files of this Leiden University dissertation

Author: Holst, Menno van der

Title: Neonatal brachial plexus palsy : impact throughout the lifespan

Date: 2017-12-20



CHAPTER TEN

Nederlandse samenvatting en Discussie

SAMENVATTING

In dit proefschrift worden verschillende aspecten van de impact van obstetrisch plexus brachialis letsel (OPBL) gedurende het leven van de patiënt beschreven. Er wordt ingegaan op de impact van OPBL op activiteiten en participatie, maar ook op wat de impact is op de kwaliteit van leven. Verder wordt onderzoek naar het zorggebruik van patiënten met OPBL beschreven, alsook naar de informatiebehoefte van hen en/of die van hun ouders. Daarnaast behelst dit proefschrift de ontwikkeling en de evaluatie van meetinstrumenten die gebruikt kunnen worden om uitkomsten van OPBL te meten.

Hoofdstuk 1, de algemene introductie van dit proefschrift, beschrijft de karakteristieke eigenschappen van OPBL met betrekking tot de uitgebreidheid, de ernst en het natuurlijk beloop van dit traumatische geboorteletsel. In dit hoofdstuk worden zowel de conservatieve behandeling, inclusief (kinder)fysiotherapie, alsook de mogelijke primaire en secundaire chirurgische behandelingen beschreven. Verder worden belangrijke aspecten en consequenties van OPBL weergegeven in relatie tot de 'International Classification of Functioning, Disability and Health' (ICF).¹

Met behulp van dit ICF-model worden ook veel gebruikte meetinstrumenten om uitkomsten van OPBL te meten, geïntroduceerd.

De uitkomsten van secundaire schouderchirurgie bij kinderen met OPBL is reeds in meerdere wetenschappelijke studies beschreven. Deze studies beschrijven de uitkomsten echter voornamelijk op het gebied van het ICF-component; 'functies en anatomische eigenschappen'. Een uitgebreide analyse van de uitkomsten van deze operatie op meerdere componenten van de ICF (dat wil zeggen zowel 'functies en anatomische eigenschappen' alsook 'activiteiten en participatie'), waarbij ook de verwachtingen van ouders en hun tevredenheid over de behandeling werd meegenomen, was nog niet voorhanden. **Hoofdstuk 2** beschrijft de korte termijn uitkomsten van het opheffen van een schouder endorotatiecontractuur in combinatie met het verplaatsen van spieren en pezen (mm. Latissimus Dorsi en Teres Major) bij kinderen met OPBL in relatie tot de arm en handfunctie, de kwaliteit van leven en de tevredenheid van ouders met betrekking tot de resultaten van deze ingreep. Het doel van de ingreep is het verbeteren van de schouder exorotatie bewegingsmogelijkheden en daardoor de mogelijkheid om de hand naar het hoofd en de mond te brengen, het verbeteren van het gebruik van de aangedane arm tijdens tweehandige taken en om verergering van schoudervergroeiingen te voorkomen. Er is een prospectieve studie uitgevoerd naar het effect van deze exorotatieplastiek bij 10 kinderen tussen de 3 en 10 jaar oud waarbij de kinderen een dag voor de operatie en 3, 6 en 12 maanden na de operatie gemeten werden. Deze studie liet zien dat alle eerder beschreven functies en vaardigheden significant verbeterden in het jaar volgend op de operatie. Er werd echter ook gevonden dat de kinderen na de operatie meer moeite hadden om de arm naar achteren te bewegen (retroflexie) en om de hand op de rug te leggen. De door ouders gerapporteerde kwaliteit van leven met betrekking tot het functioneren van de arm, en het functioneren in het

algemeen, verbeterde ook significant in het jaar volgend op de operatie. De meerderheid van de ouders was erg tevreden met de uitkomsten van de ingreep en zij vonden dat hun verwachtingen met betrekking tot de verbetering op het gebied van activiteiten en sport veelal waren uitgekomen.

Studies die de uitkomsten van secundaire schouder chirurgie bij kinderen met OPBL op de lange termijn beschrijven combineren meestal de data van de kinderen met en zonder primaire (neuro) chirurgie in de voorgeschiedenis. **Hoofdstuk 3** beschrijft de functionele uitkomsten over de loop van de tijd apart voor kinderen met en zonder primaire (neuro) chirurgie in de voorgeschiedenis. Er werd een retrospectieve studie uitgevoerd waarbij er gebruik gemaakt werd van data verzameld volgens een gestandaardiseerd klinisch protocol. Data van in totaal 115 kinderen, waarvan er 82 primaire (neuro) chirurgie hadden ondergaan en 33 niet, werden geanalyseerd. De gemiddelde follow-up duur voor al deze kinderen was 6 jaar (standaarddeviatie 3.3 jaar). Er werd in deze studie gekeken naar de actieve en passieve bewegingsmogelijkheden van de aangedane arm en er werd gekeken naar de Mallet scores van deze kinderen vóór de operatie en 1, 3, 5 en 10 jaar na de operatie. In de totale groep namen de actieve en passieve exorotatie, de (glenohumerales) abductie en de anteflexie, alsmede bijna alle Mallet score items over de tijd significant toe. In de loop der tijd namen de positieve effecten van de chirurgische ingreep wat af, maar de verschillen ten opzichte van voor de operatie bleven statistisch significant. Daarnaast werd er gevonden dat de mogelijkheden om de arm naar achteren te bewegen (retroflexie) en om de hand op de rug te leggen, zoals gemeten met de Mallet score, significant afnamen wat aansluit bij de bevindingen in hoofdstuk 2.

Kinderen die geen primaire (neuro) chirurgie hebben ondergaan, hadden een betere schouderfunctie vóór de ingreep dan de kinderen die wel primaire (neuro) chirurgie hebben ondergaan. De primair conservatief behandelde kinderen hadden ook op alle follow-up momenten een betere schouderfunctie ná de secundaire chirurgische ingreep. Alleen actieve en passieve exorotatie, zowel in 0° als in 90° abductie, waren enigszins beter op alle follow-up momenten voor de kinderen die primaire (neuro) chirurgie hadden ondergaan.

Deze uitkomsten laten zien dat de beschreven groepen bestaan uit kinderen met twee verschillende fenotypen (wat betreft de ernst van het letsel van de plexus brachialis). De uitkomsten van chirurgische ingrepen bij deze kinderen zouden voor de beide groepen apart beschreven moeten worden. Hierdoor kan er voorkomen worden dat er een onder- of overschatting van de resultaten van de orthopedisch chirurgische ingreep gegeven wordt. Tevens kan er hierdoor betere, op maat gesneden informatie aan de patiënt en zijn of haar ouders gegeven worden zodat zij een beter beeld hebben van de te verwachten uitkomsten van de ingreep waardoor de kwaliteit van het beslissingsproces gewaarborgd kan worden.

Door patiënt en/of ouders gerapporteerde uitkomsten (Patient Reported Outcome Measures: PROMs) worden steeds belangrijker bij het evalueren van behandelingen. De meeste uitkomstmaten zijn echter alleen voorhanden in het Engels waardoor ze niet bruikbaar zijn in Nederlandse studies. Het is daarom nodig om goede uitkomstmaten, die

niet voorhanden zijn in het Nederlands, te vertalen en aan te passen aan de Nederlandse situatie. De 'Pediatric Outcome Data Collecting Instrument' (PODCI) is een PROM gericht op patiënten met een musculoskeletale aandoening, die gevalideerd is voor gebruik in de OPBL-populatie. Tot voor kort was deze vragenlijst niet beschikbaar in het Nederlands. Van de PODCI is er een 2-10 jaar en 10-18 jaar ouderversie en een 10-18 jaar jongerenversie beschikbaar. De vragenlijsten bestaan uit 83-86 vragen (afhankelijk van de versie) en er kunnen 5 sub schalen en een totale score berekend worden. In **Hoofdstuk 4** wordt het proces van vertaling en adaptatie van de PODCI naar de Nederlandse taal en situatie volgens internationale richtlijnen voor het vertalen van vragenlijsten beschreven.²⁻⁴ Verder wordt de validatie van het gebruik van de 2-10 jaar Nederlandse ouderversie bij kinderen met OPBL weergegeven. Met de uiteindelijke 2-10 jaar Nederlandse ouderversie is een veldtest uitgevoerd onder 10 kinderen met OPBL tussen de 3 en 10 jaar oud. Voor de validatie is deze vragenlijst vervolgens gebruikt bij 10 kinderen die een secundaire chirurgische ingreep aan de schouder ondergingen, en werd deze ingevuld door ouders vóór de operatie en 12 maanden na de operatie. Om de test-hertest betrouwbaarheid vast te stellen is de PODCI daarna nog 2 maal ingevuld door ouders, met een tussenpose van 2 weken. De conclusie van deze studie was dat de Nederlandse PODCI een bruikbaar en betrouwbaar instrument is om de kwaliteit van leven en het functioneren van kinderen met OPBL te meten. De interne consistentie van de vragenlijst, de responsiviteit om verandering te meten, de construct validiteit en de test-hertest betrouwbaarheid werden over het algemeen goed bevonden.

Omdat er maar weinig vragenlijsten beschikbaar zijn die het gebruik van de aangedane hand meten bij kinderen met een unilaterale parese, is recent de 'Hand Use at Home' (HUH) vragenlijst ontwikkeld en getest voor kinderen met OPBL of met een unilaterale cerebrale parese (UCP). Dit nieuwe instrument meet het spontane gebruik van de aangedane hand in de thuissituatie en is bruikbaar bij kinderen met een unilaterale parese. Middels Rasch analyse is aangetoond dat de HUH een valide instrument is met goede psychometrische eigenschappen op het gebied van construct validiteit, interne consistentie en onderscheidende capaciteiten.⁵ In **Hoofdstuk 5** wordt aanvullend bewijs met betrekking tot de goede construct validiteit en test-hertest betrouwbaarheid van de HUH bij kinderen met OPBL of UCP beschreven. Om de construct validiteit te bepalen werden 191 kinderen met OPBL en 79 kinderen met UCP geselecteerd. De ouders van deze kinderen hebben de HUH eenmalig ingevuld en daarnaast hebben de ouders van de kinderen met OPBL de PODCI ingevuld en hebben de ouders van de kinderen met UCP de 'Children's Hand use Experience Questionnaire' (CHEQ) ingevuld. Om de test-hertest betrouwbaarheid te bepalen, hebben de ouders van 56 kinderen (16 kinderen met OPBL en 40 met UCP) de HUH nog een tweede maal ingevuld binnen 2-4 weken nadat ze de eerste HUH hadden ingevuld. De resultaten van deze studie laten zien dat de HUH een valide en betrouwbaar instrument is om te gebruiken bij kinderen met OPBL of UCP tussen de 3 en 10 jaar. Er werd een significante relatie gevonden met de uitgebreidheid van het plexusletsel, wat duidelijk maakte dat uitgebreider letsel verminderd spontaan handgebruik geeft. Er werd een relatief zwakke relatie gevonden met de behandelgeschiedenis van kinderen met OPBL (conservatief

of chirurgisch behandeld). Voor kinderen met UCP werd een zwakke relatie gevonden met de 'Manual Ability Classification System' (MACS), wat aangeeft dat het hebben van een relatief goede mogelijkheid tot het gebruik van de aangedane arm/hand niet altijd automatisch leidt tot het meer spontaan gebruiken van deze arm/hand.

De test-hertest betrouwbaarheid van de HUH werd zeer goed bevonden, gebaseerd op de goede 'Intra Class Correlation coefficient' (ICC) en de goede overeenstemming tussen de eerste en tweede HUH score (Bland-Altman⁶). Op basis van deze resultaten kan geconcludeerd worden dat de HUH goed gebruikt kan worden door ouders van kinderen met een unilaterale parese, in de leeftijd van 3-10 jaar, om het spontane gebruik van de aangedane hand in het dagelijkse leven in kaart te brengen. De uitkomsten van de HUH kunnen gebruikt worden door klinici en onderzoekers om meer inzicht te krijgen in het gebruik van de aangedane arm/hand in het dagelijks leven. Vervolgonderzoek naar de mogelijkheden van de HUH om veranderingen over de tijd te meten moet nog worden uitgevoerd om de resterende psychometrische eigenschappen van de HUH vast te stellen.

Onderzoek naar de consequenties van OPBL heeft zich tot dusver, zoals reeds eerder vermeld, voornamelijk gericht op het ICF-component; 'functies en anatomische eigenschappen'. Dit is zeker het geval in onderzoek bij jonge kinderen met OPBL. Om meer te weten te komen over de mogelijkheden op het gebied van activiteiten en participatie van kinderen en volwassenen met OPBL en om te onderzoeken wat de kwaliteit van leven, de eventuele impact op de familie, en wat het zorggebruik en de informatiebehoefte is in deze patiëntenpopulatie, is de zogenaamde ZAP-Plexus (Zorg, Activiteiten en Participatie) studie gestart in 2014. Alle patiënten die ooit in het Zenuwcentrum, een specialistische OPBL-poli in het Leids Universitair Medisch Centrum, zijn gezien werden uitgenodigd om deel te nemen aan deze cross-sectionele studie waarbij gebruik werd gemaakt van elektronische vragenlijsten. In totaal zijn er 1142 patiënten uitgenodigd van wie er uiteindelijk 508 hebben deelgenomen aan de studie. Negenvijftig van deze patiënten (12%) waren tussen de 0 en 1 jaar oud, 226 (45%) tussen de 2 en 9 jaar oud, 180 (35%) tussen de 10 en 18 jaar en 43 (8%) tussen de 19 en 61 jaar oud. De volgende 3 hoofdstukken beschrijven de analyse van een gedeelte van de verzamelde data binnen de ZAP-studie.

In **Hoofdstuk 6** wordt de door ouders ervaren impact van het hebben van een kind met OPBL op de familie, de kwaliteit van leven van het kind en de armfunctie van 59 kinderen (6-30 maanden oud) beschreven. De ouders van deze 59 kinderen hebben de 'PedsQL™ Family Impact Measure (FIM)' en de 'TNO-AZL (Nederlandse Organisatie voor toegepast-natuurwetenschappelijk onderzoek en Academisch Ziekenhuis Leiden) Preschool children's QoL (TAPQOL)' kwaliteit van leven vragenlijst ingevuld. Daarnaast hebben zij ook een aantal vragen met betrekking tot het functioneren van de aangedane arm/hand van hun kind beantwoord.

Deze studie toonde aan dat lagere FIM-scores (dat wil zeggen grotere impact) geassocieerd waren met lagere leeftijd, uitgebreider letsel, aangedane zijde (rechts), eerder ondergane neurochirurgische behandeling en of het kind nog in behandeling is bij het zenuwcentrum.

De ouders van de kinderen met OPBL beoordeelden de kwaliteit van leven van hun kind op 8 van de 12 TAPQOL schalen (66%) vergelijkbaar met hoe ouders van gezonde kinderen de kwaliteit van leven van hun kind beoordelen. Ouders die meer problemen in het functioneren van de arm van hun kind rapporteerden, hadden kinderen met een ernstiger letsel en deze ouders maakten zich meer zorgen dan ouders waarvan het kind een minder ernstig letsel had.

De bevindingen in deze studie bevestigen dat ouders tot op zekere hoogte impact op hun familie ervaren wanneer zij een kind met OPBL hebben. Tot op heden is er niet eerder een studie gepubliceerd die rapporteerde dat wanneer hele jonge kinderen met OPBL een rechtszijdig letsel hebben en wanneer er meer problemen zijn met het functioneren van de arm, dit meer impact heeft op de familie. Het is van belang dat zorgverleners die werken met kinderen met OPBL en hun ouders deze bevindingen ter harte nemen zodat zij ouders goed kunnen begeleiden. Op deze manier zou de impact op de familie mogelijk beperkt kunnen worden.

De resultaten met betrekking tot het zorggebruik en de informatiebehoefte van kinderen met OPBL (en hun ouders) tussen de 0 en 18 jaar worden besproken in **Hoofdstuk 7**. Voor deze studie zijn de data geanalyseerd van 465 deelnemende patiënten die vragenlijsten met betrekking tot zorggebruik sinds de geboorte en in de afgelopen 12 maanden hebben ingevuld. In deze vragenlijsten werd gevraagd of men contact had gehad met het plexusteam en/of met 11 andere zorgverleners. Tevens werd er gevraagd of men behoefte had aan informatie aangaande 12 OPBL gerelateerde onderwerpen. Uit de medische status van de patiënten werd informatie gehaald met betrekking tot patiënt en OPBL-karakteristieken en of men wel of niet ontslagen was uit follow-up (vroeg/laat/niet ontslagen).

Negenenvijftig deelnemende patiënten (12%) waren tussen de 0 en 1 jaar oud, 226 (45%) tussen de 2 en 9 jaar oud en 180 (35%) tussen de 10 en 18 jaar. Van deze patiënten waren er inmiddels 193 ontslagen uit follow-up (42%) waarvan er 83 werden gecategoriseerd als zijnde vroeg ontslagen. Vroeg ontslagen houdt in dat deze patiënten uit zorg ontslagen werden voordat zij 1 jaar oud waren omdat ze goed spontaan herstel lieten zien.

Deze studie toonde aan dat het zorggebruik van kinderen met OPBL in Nederland aanzienlijk is vanaf het moment dat de diagnose gesteld is. Ouders rapporteerden dat ze, naast het contact met het plexusteam, met tenminste 1 en met maximaal 11 (afhankelijk van de ernst van het letsel) zorgverleners contact hebben gehad wegens het OPBL van hun kind, sinds de geboorte. Over de tijd nam dit zorggebruik weer af, waarbij 288 ouders rapporteerden de afgelopen 12 maanden contact te hebben gehad met tenminste 1 en met maximaal 7 zorgverleners naast het eventuele contact met het plexusteam. Het zorggebruik in de afgelopen 12 maanden was significant geassocieerd met het nog in behandeling zijn bij het plexusteam, met ernstiger letsel, chirurgische behandelingen, verminderde kwaliteit van leven en verminderd fysiek functioneren.

Een relatief groot gedeelte van de patiënten die ontslagen waren uit follow-up (81/193, 42%) had nog steeds contact met zorgverleners vanwege hun OPBL. Onder hen waren 34 patiënten waarvan gedacht werd dat volledig spontaan herstel was opgetreden, waardoor

ze ontslagen werden uit follow-up voordat ze 1 jaar oud waren. Dit betekent dat deze patiënten, tegen alle verwachtingen in, toch nog functionele beperkingen kunnen ervaren. Met betrekking tot de informatiebehoefte rapporteerde een relatief grote groep patiënten (49%) dat zij behoefte hadden aan meer informatie over verschillende aspecten van OPBL (onder andere over behandeling, sport en fysiek functioneren en hulpmiddelen). Onder hen waren 65 ontslagen patiënten, van wie er 23 ontslagen waren voor het eerste levensjaar. Deze bevindingen maken duidelijk dat een aanzienlijke hoeveelheid patiënten beperkingen ervaart en informatiebehoefte heeft nadat ze ontslagen zijn door het plexusteam. Daarom is een strikter protocol voor langere follow-up en informatievoorziening nodig.

In **Hoofdstuk 8** worden beperkingen in participatie beschreven, zoals deze ervaren worden door adolescente en volwassen patiënten met OPBL. Aan deze studie deden 75 adolescente en volwassen patiënten tussen de 16 en 61 jaar oud mee. Van hen waren 33 tussen de 16 en 18 jaar oud, 22 tussen de 19 en 25 jaar, 11 tussen de 26 en 35 en 9 tussen de 36 en 61 jaar oud.

De deelnemende patiënten vulden vragen in met betrekking tot de invloed van OPBL op hun studie en werkkeuze, en met betrekking tot de invloed op het uitvoeren van hun werk. Verder werden de 'Impact on Participation and Autonomy' (IPA, 5 domeinen) en de 'Utrecht Scale for Evaluation of Rehabilitation-Participation' (USER-P; 3 domeinen) ingevuld. Om de gezondheid gerelateerde kwaliteit van leven in kaart te brengen werd de 'Short Form 36' (SF-36) en de 'Disability of the Arm, Shoulder and Hand' (DASH) vragenlijsten ingevuld. In aanvulling op de verkregen data werd uit de status van de deelnemende patiënten de patiënt en OPBL-karakteristieken gehaald.

Van de 75 deelnemende patiënten waren 20 voltijd student (27%), 28 student met een bijbaantje (37%), 21 werkten (28%), 2 waren werkloos (3%) en 4 arbeidsongeschikt vanwege hun plexus letsel (5%). Over het algemeen was de gezondheid gerelateerde kwaliteit van leven van de patiënten goed. Een groot gedeelte van de deelnemende adolescenten en volwassenen (54/75, 72%) gaf aan dat zij enige vorm van beperking in participatie ervaarden, voornamelijk op het gebied van werk en studiekeuze. 27 van de 75 patiënten geven aan dat OPBL invloed heeft gehad op de keuzes die zij gemaakt hebben op het gebied van studie en 26 van de 75 gaven aan dat het geval was voor keuze van werk. 33 van de 66 patiënten die ooit gewerkt heeft gaf aan dat OPBL ook invloed heeft gehad op het uitvoeren van hun werk. Op de IPA geeft 80% (49/61) restricties in het 'werk en opleiding' domein aan, 74% in het 'sociale relaties' domein en 67% in het 'autonomie buitenshuis' domein. 37 van de 61 patiënten geeft participatie restricties aan op de USER-P en geeft aan enigszins verminderd tevreden te zijn met de participatiemogelijkheden die zij hebben.

Participatiebeperkingen waren geassocieerd met een verminderde mogelijkheid van het gebruiken van de arm (DASH-score), verminderde kwaliteit van leven en meer pijn (SF-36-scores), maar niet met de uitgebreidheid van het letsel, de behandelingen in het verleden of de zijde van het letsel (links of rechts). Dit zou kunnen inhouden dat alle patiënten met OPBL, ongeacht de ernst van het initiële letsel, op latere leeftijd participatierestricties kunnen ervaren.

Deze bevindingen zijn relatief nieuw en geven aan dat het nodig is om de zorg te optimaliseren. Het is hierbij belangrijk dat patiënten in een vroeg stadium ondersteund worden bij het maken van keuzes op het gebied van studie en werk en dat zij op maat gemaakte fysieke en psychosociale zorg ontvangen om beperkingen te minimaliseren wat participatie ten goede kan komen.

ALGEMENE DISCUSSIE

Obstetrisch plexus brachialis letsel (OPBL) is een geboorte letsel van de plexus brachialis, die kan resulteren in diverse functionele problemen. Ongeveer 35% van de patiënten blijft in meer of mindere mate beperkingen houden op het gebied van dagelijkse activiteiten en participatie.^{7,8} Veel onderzoek naar OPBL is gericht op functie- en structuurniveau van het ICF.⁹⁻²¹ Het is echter belangrijk ook te focussen op het activiteiten- en participatieniveau en daarom richt dit proefschrift zich op alle aspecten van de ICF en wordt de impact van OPBL in brede zin en door het leven heen beschreven. Een deel van de uitkomsten beschreven in dit proefschrift komt voort uit de 'Zorg, Activiteiten en Participatie bij patiënten met OPBL' studie (ZAP-Plexus studie).

FUNCTIONELE UITKOMSTEN VAN SECUNDAIRE SCHOUDER CHIRURGIE

Dit proefschrift toont aan dat secundaire schouderchirurgie effectief is bij kinderen met OPBL en de uitkomsten sluiten daarbij aan bij de huidige literatuur.⁹⁻²¹ In dit proefschrift wordt echter duidelijk dat de ingreep ook een positief effect heeft op activiteiten- en participatieniveau en dat ouders over het algemeen heel tevreden zijn over de resultaten van de ingreep. Voor patiënten die in het verleden een neurochirurgische ingreep hebben ondergaan zijn de uitkomsten van de chirurgie wel anders dan voor patiënten die deze ingreep niet hebben ondergaan omdat deze patiënten een andere uitgangssituatie hebben wat invloed heeft op de uitkomsten. Concluderend is het van belang om uitkomsten van secundaire schouderchirurgie niet alleen te beschrijven op het gebied van functie en structuur maar ook op het gebied van activiteiten en participatie, en dit voor beide subgroepen patiënten apart te doen.

UITKOMSTMATEN VOOR OPBL

Er zijn vele uitkomstmaten beschikbaar voor OPBL en de voor dit proefschrift volgens internationale richtlijnen²⁻⁴ vertaalde PODCI (Pediatric Outcome Data Collecting Instrument) blijkt een goede aanvulling voor de bestaande Nederlandse uitkomstmaten voor OPBL. De PODCI meet onder andere de armfunctie van kinderen, er wordt daarbij echter niet gekeken naar spontaan gebruik in de thuissituatie. Ondanks dat er uitkomstmaten bestaan die

armgebruik meten, zoals de ABILHAND-kids²² en de Children's Hand Experience Questionnaire (CHEQ)^{23,24}, was er geen instrument voorhanden die het door ouders gerapporteerde spontane gebruik in de thuissituatie kon meten. In samenwerking met de Sint Maartenskliniek in Nijmegen is daarom de HUH (Hand Use at Home) vragenlijst ontwikkeld die dit wel meet.⁵ Om de waarde van zowel de PODCI als de HUH binnen de OPBL populatie verder te bepalen zijn extra studies nodig die ook kijken naar de mogelijkheden van deze instrumenten om verandering over de tijd te meten in grote groepen patiënten.

Generieke kwaliteit van leven vragenlijsten

Het belang van het meten van de door de patiënt of ouders gerapporteerde kwaliteit van leven (KvL) van patiënten met OPBL wordt onderschreven in de literatuur.²⁵ Er wordt onder andere aangegeven dat generieke vragenlijsten hiervoor wellicht geschikt zouden zijn. In dit proefschrift wordt de generieke TAPQOL (TNO-AZL; Nederlandse organisatie voor toegepast natuurwetenschappelijk onderzoek en het academisch ziekenhuis Leiden, preschool childrens quality of life²⁶) vragenlijst gebruikt en het blijkt dat deze vragenlijst in de plexuspopulatie geen problemen op het gebied van kwaliteit van leven laat zien. De vraag rijst dan ook of generieke vragenlijsten wel in staat zijn om verminderde kwaliteit van leven op te pikken in deze populatie. Vervolgonderzoek moet uitwijzen wat de rol voor generieke KvL vragenlijsten is in OPBL-onderzoek. Binnen dit onderzoek zouden ook andere lijsten, zoals de PedsQL™ KvL vragenlijsten^{27,28}, gebruikt kunnen worden omdat deze ook reeds eerder in ander revalidatie onderzoek zijn gebruikt.²⁹⁻³¹ Uitkomsten van kinderen met OPBL zouden dan vergeleken kunnen worden met uitkomsten van andere patiëntengroepen.

Impact op de familie

In dit proefschrift werd met de PedsQL™ Family Impact Module (FIM)³² aangetoond dat ouders tot op zekere hoogte impact op hun gezin ervaren wanneer zij een kind met OPBL hebben. De mate van impact bleek afhankelijk te zijn van verschillende factoren zoals rechtszijdig letsel, ernst van het letsel en jongere leeftijd. In de dagelijkse praktijk zou er meer aandacht moeten zijn voor impact op de familie. De FIM zou hierbij een goede aanvulling zijn op de reeds gebruikte batterij meetinstrumenten binnen de zorg vanuit de plexusteams.

Lange termijn consequenties van OPBL

Plexus brachialis letsel heeft niet alleen consequenties op de kinderleeftijd maar ook volwassenen rapporteren problemen zoals blijkt in dit proefschrift. De ervaren problemen die gerapporteerd worden, liggen met name op het gebied van werk en studie. Zowel de uitvoering als de keuze op deze gebieden blijkt beïnvloed te worden door OPBL. Factoren die hierbij een rol spelen zijn de mate van ervaren pijn en functionele beperkingen op het gebied van armfunctie³³⁻³⁵. Ondanks dat deze problemen gerapporteerd worden zijn er maar weinig volwassen patiënten onder controle bij het plexus team en/of onder behandeling in revalidatiecentra.^{34,36} De resultaten geven aan dat meer onderzoek naar de consequenties van OPBL op de volwassen leeftijd gewenst is, en in aanvulling op interventies, uitgevoerd op

de kinderleeftijd, wellicht ook op latere leeftijd voor sommige patiënten extra begeleiding nodig is om het functioneren op de langere termijn te verbeteren.

ICF core set

Om de impact van OPBL goed te kunnen bepalen is het belangrijk om een universeel raamwerk voor een set van uitkomstmaten te hebben. Binnen het LUMC is er een voorstel, bestaande uit vier stappen, gedaan om zo'n raamwerk volgens het ICF model op te zetten.³⁷ Een aantal stappen, zoals het uitvoeren van een systematische review voor het identificeren van geschikte uitkomstmaten²⁵ en een kwalitatieve studie naar wat patiënten met OPBL belangrijk vinden in hun functioneren³⁸, zijn reeds uitgevoerd. De ZAP-Plexus cross-sectionele studie is een vervolgstap op de hiervoor genoemde stappen en de uitkomsten van dit onderzoek zijn gedeeltelijk in dit proefschrift beschreven. Uit onderzoek blijkt dat er geen consensus bestaat hoe uitkomsten bij OPBL precies gemeten moeten worden en welke meetinstrumenten hiervoor gebruikt zouden moeten worden.^{25,39-41} Om internationaal tot consensus te komen over wat er belangrijk is om te meten en met welke meetinstrumenten dit moet gebeuren, is het iPLUTO (international PLeXus oUtcome sTudy group) initiatief in het leven geroepen door het Leidse zenuwcentrum. Middels dit initiatief is een van de resterende stappen ondernomen waarbij door middel van het uitzetten van een enquête onder OPBL-experts getracht wordt voorgenoemde consensus te bereiken in het kader van het te ontwikkelen raamwerk.

GEZONDHEIDSZORG BIJ OBSTETRISCH PLEXUS BRACHIALIS LETSEL

Vroege verwijzing

Het is van belang kinderen met een ernstig OPBL vroeg door te verwijzen naar een OPBL-expert centrum. Dit geldt ook voor kinderen waarbij over de ernst van het letsel getwijfeld wordt. Dit proefschrift laat namelijk zien dat ook kinderen waarvan gedacht wordt dat ze spontaan hersteld zijn, toch op latere leeftijd problemen rapporteren. Op jaarbasis worden er naar schatting ongeveer 200-350 kinderen met OPBL geboren (incidentie 1-2/1000⁴², geboortecijfers 170000-180000/jaar: CBS, statline.cbs.nl 2012-2015) maar de exacte incidentie is niet bekend. Het is ook niet bekend hoeveel van deze kinderen er gezien worden in de 3 expert centra die er in Nederland zijn. Een nationale en internationale samenwerking (onder de vlag van iPLUTO) om inzichtelijk te krijgen wat de incidentie is, hoeveel nieuwe kinderen er jaarlijks gezien worden en wat de uitkomsten van alle kinderen met OPBL (conservatief en chirurgisch behandeld) zijn, is van belang om beter inzicht te krijgen in de populatie en de verschillende behandelstrategieën.

Vroeg en laat ontslag uit OPBL-expert centra

Zoals reeds aangegeven wordt in dit proefschrift bewijs geleverd dat sommige kinderen die ontslagen zijn uit follow-up van het multidisciplinaire plexusteam toch nog problemen ervaren en elders nog actieve therapie voor hun OPBL krijgen. Het is daarom de vraag of

de criteria voor ontslag adequaat zijn. Een lange termijn prospectieve studie zou een antwoord op deze vraag kunnen geven.

Zorggebruik en de rol van de fysiotherapie

Zorggebruik door kinderen met OPBL is afhankelijk van het letsel, het functioneel herstel en de behandelstrategie. Uit ons onderzoek blijkt dat de meest gebruikte zorgverlener voor OPBL, de (kinder)fysiotherapeut is. Onder volwassen patiënten blijkt ook 20% contact te hebben met de fysiotherapeut. Er is echter op het gebied van de effectiviteit van fysiotherapie bij OPBL bijna geen literatuur voorhanden. Er zijn wel aanbevelingen voor de inhoud van het fysiotherapie programma en zo wordt het monitoren van de motoriek, de gewrichtsmobiliteit en de spierkracht aangeraden. Binnen de vroege interventie wordt ook het geven van instructies aan ouders op het gebied van houding en hantering, verzorgen en oefenen aangeraden. Er wordt over het algemeen aangeraden om fysiotherapie binnen 1-3 weken na de geboorte te starten, maar het kan al gestart worden zodra het kind geboren is.^{36,43,44} In het LUMC wordt de fysiotherapie gestart direct na de geboorte en wordt er gewerkt volgens een vast protocol van passieve oefeningen (persoonlijke communicatie S.M. Buitenhuis / J.C. van Egmond-van Dam).

Het onderhouden van de passieve mobiliteit wordt sterk aangeraden in de literatuur om contracturen te voorkomen.^{36,44-49} Het combineren van deze passieve oefeningen met actieve oefentherapie zou contracturen, spierdysbalans en gewrichtsvervorming in opgroeiende kinderen tegen kunnen gaan.^{43,46,47} Er is echter tot op heden nog geen overtuigende evidentie voor deze oefenvormen.

Voor de fysiotherapie is het verder van belang de ontwikkeling van de motoriek te monitoren en te stimuleren.^{43,44,47} Kinderen met OPBL gebruiken soms hun aangedane arm minder vaak dan de niet aangedane arm en kunnen daarom bij rechtszijdig letsel, linkshandig worden.^{50,51} Het komt ook voor dat ze vergeten de aangedane arm te gebruiken doordat ze erg goed zijn in compenseren.^{43,52} Deze fenomenen moeten herkend en behandeld worden door (kinder)fysiotherapeuten en/of ergotherapeuten.

Het inzetten van het geforceerd laten gebruiken van de aangedane arm tijdens therapie (CiMT: constraint induced movement therapy), en eventueel tweehandig trainen (BIT: bimanual intensive training), wordt in de literatuur ook voorgesteld om functie te verbeteren.^{43,46,47,53,54} In de dagelijkse praktijk zien wij echter kinderen met klachten van overbelasting, mogelijk als gevolg van deze vormen van therapie. De toegevoegde waarde van deze therapieën zou verder onderzocht moeten worden.

Naast (kinder)fysiotherapie zijn het uitvoeren van huiswerk oefenprogramma's minstens zo belangrijk.^{44,46-48,55,56} In de praktijk lijkt het erop dat kinderen van ouders die zich goed houden aan deze programma's beter presteren, echter dit is lastig aan te tonen. Het is in elk geval van belang om de oefenprogramma's aan te bieden en ervoor zorg te dragen dat deze ook uitgevoerd blijven worden.^{48,56} Allerhande middelen, zoals multimedia en gaming, zouden voor dit doeleinde kunnen worden ingezet en onderzocht.

INFORMATIEBEHOEFTE EN INFORMATIEVOORZIENING

Aangezien dit proefschrift laat zien dat de informatiebehoefte in de ZAP Plexus onderzoekspopulatie groot is, en er aangegeven wordt dat er af en toe tegenstrijdige informatie gegeven is, is het van belang de informatievoorziening te optimaliseren en uniformeren. Tevens is het hierbij van belang dat er kennisuitwisseling plaats vindt tussen de verschillende zorgverleners. Hiervoor wordt aangeraden om een modulaire informatiefilm te maken welke informatie geeft die toegespitst is op de individuele patiënt en zijn/haar huidige levensfase (e.g. als het naar school gaat, als het een sport gaat kiezen, als er studie of werkkeuzes gemaakt moeten worden).

IMPLICATIES EN RICHTING VOOR ZORG EN TOEKOMSTIG ONDERZOEK

De belangrijkste bevindingen van dit proefschrift zijn onder andere de aangegeven beperkingen in activiteiten en participatie, het bijkomende zorggebruik, alsmede de informatiebehoefte, die zelfs door OPBL-patiënten die reeds ontslagen zijn uit follow-up worden aangegeven. Verder werd er gevonden dat er mogelijk te weinig aandacht is voor de impact die OPBL op het gezin kan hebben.

De meeste experts zijn het eens over het feit dat de hierboven genoemde aspecten meer aandacht verdienen en beter onderzocht moeten worden. Er is echter nog geen consensus over hoe dit op de lange termijn vorm gegeven moet worden. Daarom kunnen de volgende aanbevelingen gedaan worden om de patiëntenzorg te verbeteren:

- Impact op de familie
 - Vanaf de geboorte zou er meer aandacht besteed moeten worden aan impact van OPBL op de familie. Indien nodig kan dan in een vroeg stadium hulp geboden worden.
 - Psychosociale hulpverlening (i.e. psychologie, maatschappelijk werk) zouden standaard deel uit moeten maken van het OPBL-expert team.
- Routine follow-up
 - Er zou een strikter follow-up protocol gedurende het leven van de patiënt gehanteerd moeten worden, waarbij alle componenten van de ICF gemonitord worden.
 - De HUH moet standaard afgenomen worden binnen het Leidse Zenuwcentrum en in andere OPBL-centra in de wereld.
 - OPBL-expert teams zouden proactief patiënten/ouders moeten benaderen om te verifiëren of er wel of geen problemen bestaan op de componenten van de ICF.
- Informatiebehoefte
 - Informatievoorziening dient geoptimaliseerd te worden en aangepast aan de individuele patiënt om zo aan de behoefte van patiënten/ouders te voldoen.
- (Kinder)fysiotherapie
 - Er dient een fysiotherapie consensus behandel/zorgprotocol opgesteld te worden voor de verschillende leeftijds- en ontwikkelingsfases gedurende het leven. Dit protocol dient te voorzien in aanbevelingen op het gebied van oefenvormen, oefenduur, oefenfrequentie, oefenweerstand, huiswerkprogramma's, ondersteuning van ouders en leerkrachten, etc. en dient systematisch geëvalueerd te worden.

Alle hiervoor beschreven aanbevelingen moeten besproken en ontwikkeld worden in nauwe samenwerking tussen behandelaars, ouders en de patiëntenorganisatie.

De volgende richtingen voor toekomstig onderzoek kunnen overwogen worden:

- Nieuw onderzoek
 - Een follow-up studie naar de impact op de familie direct na de geboorte en 1, 3, 6 en 12 maanden na de geboorte en ieder opvolgend jaar zou meer informatie kunnen geven over het beloop in de tijd van de impact op de familie.
 - Een follow-up studie naar participatie, in het bijzonder op het gebied van werk gerelateerde problemen en behoeftes, zou uitgevoerd moeten worden onder alle adolescente en volwassen patiënten met OPBL.
 - Een studie waarbij verschillende fysiotherapeutische behandelprotocollen (typen oefeningen en hun duur, frequentie en intensiteit) vergeleken worden, moet worden uitgevoerd om te bepalen wat het beste behandelprotocol is.
 - Draagbare accelerometers of andere vormen van bewegingsmonitoring, die tenminste een week gedragen worden, zouden gebruikt moeten worden om op een meer objectieve manier dagelijkse activiteiten te evalueren. Dergelijke metingen kunnen thuis uitgevoerd worden voordat het bezoek aan de polikliniek plaats vindt of indien er achteruitgang van functie is.
- Toekomstig onderzoek gebaseerd op de ZAP-Plexus studie
 - Een cross-sectionele studie, mogelijk met opvolgend een follow-up studie, gericht op fysiek functioneren en sportparticipatie bij kinderen zou uitgevoerd moeten worden om betere informatie op deze gebieden te kunnen geven aan patiënten.
 - De resterende data van de ZAP-plexus studie moet geanalyseerd worden om nog verder inzicht te krijgen in de impact van OPBL (i.e. sensibiliteit en sensitisatie, armfunctie in de gehele populatie en zorggebruik en informatiebehoefte van volwassen patiënten). Tevens kan er daarbij bekeken worden welke meetinstrumenten in staat zijn om problemen in de OPBL-patiëntenpopulatie te registreren.
 - De toegevoegde waarde van het gebruik van de PODCI en de HUH in de OPBL-patiëntenpopulatie, inclusief de sensitiviteit om veranderingen over de tijd te meten, dient verder bepaald te worden
 - Een follow-up van de huidige ZAP-plexus studie waarmee inzicht verkregen kan worden in het beloop van OPBL over de tijd in het nu goed gedefinieerde en beschreven cohort, dient uitgevoerd te worden.

Al deze inspanningen zijn nodig om een beter inzicht te krijgen in de gezondheidsstatus en gezondheidszorgbehoeftes van alle patiënten met OPBL wat tot verbeterde zorg kan leiden voor deze levenslange aandoening. Middels verbeterde zorg, die zich richt op betere participatie in de maatschappij, waarbij de patiënt ondersteund wordt bij het zich aanpassen aan iedere nieuwe fase van het leven indien nodig, kan de impact van OPBL door het leven heen gereduceerd worden, hetgeen tot een betere kwaliteit van leven van patiënten en hun ouders en naasten leidt.

REFERENCES

1. WHO. ICF Domains. 2015; <http://www.who.int/classifications/icf/en/>.
2. Beaton D.E., Bombardier C., Guillemin F., Ferraz M.B. Guidelines for the process of cross-cultural adaptation of self-report measures. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2000;25(24):3186-3191.
3. Guillemin F., Bombardier C., Beaton D. Cross-cultural adaptation of health-related quality of life measures: literature review and proposed guidelines. *J.Clin.Epidemiol.* 1993;46(12):1417-1432.
4. Maher C.G., Latimer J., Costa L.O.P. The relevance of cross-cultural adaptation and clinimetrics for physical therapy instruments. *Rev Bras Fisioter.* 2007;11(4):245-252.
5. Yvonne Geerdink Pauline Aarts, Menno van der Holst, Robert Lindeboom, Jan van der Burg, Bert Steenbergen, Alexander C. Geurts. Development and psychometric properties of the Hand-Use-at-Home questionnaire to assess amount of affected hand use in children with unilateral paresis. Submitted september 2016.
6. Giavarina D. Understanding Bland Altman analysis. *Biochem Med (Zagreb)*. 2015;25(2):141-151.
7. Foad S.L., Mehlman C.T., Foad M.B., Lippert W.C. Prognosis following neonatal brachial plexus palsy: an evidence-based review. *J.Child Orthop.* 2009;3(6):459-463.
8. Duff S. V., DeMatteo C. Clinical assessment of the infant and child following perinatal brachial plexus injury. *J Hand Ther.* 2015;28(2):126-133; quiz 134.
9. Phipps G.J., Hoffer M.M. Latissimus dorsi and teres major transfer to rotator cuff for Erb's palsy. *J.Shoulder.Elbow.Surg.* 1995;4(2):124-129.
10. Edwards T.B., Baghian S., Faust D.C., Willis R.B. Results of latissimus dorsi and teres major transfer to the rotator cuff in the treatment of Erb's palsy. *J.Pediatr.Orthop.* 2000;20(3):375-379.
11. Suenaga N., Minami A., Kaneda K. Long-term results of multiple muscle transfer to reconstruct shoulder function in patients with birth palsy: eleven-year follow-up. *J.Pediatr.Orthop.* 1999;19(5):669-671.
12. van der Sluijs J.A., van Ouwkerk W.J., de Gast A., Nollet F., Winters H., Wuisman P.I. Treatment of internal rotation contracture of the shoulder in obstetric brachial plexus lesions by subscapular tendon lengthening and open reduction: early results and complications. *J.Pediatr.Orthop.B.* 2004;13(3):218-224.
13. Aydin A., Ozkan T., Onel D. Does preoperative abduction value affect functional outcome of combined muscle transfer and release procedures in obstetrical palsy patients with shoulder involvement? *BMC.Musculoskelet. Disord.* 2004;5:25.
14. Vallejo G.I., Toh S., Arai H., Arai K., Harata S. Results of the latissimus dorsi and teres major tendon transfer on to the rotator cuff for brachial plexus palsy at birth. *Scand.J.Plast.Reconstr.Surg. Hand Surg.* 2002;36(4):207-211.
15. Terzis J.K., Kokkalis Z.T. Outcomes of secondary shoulder reconstruction in obstetrical brachial plexus palsy. *Plast.Reconstr.Surg.* 2008;122(6):1812-1822.
16. Chen L., Gu Y.D., Hu S.N. Applying transfer of trapezius and/or latissimus dorsi with teres major for reconstruction of abduction and external rotation of the shoulder in obstetrical brachial plexus palsy. *J.Reconstr.Microsurg.* 2002;18(4):275-280.
17. Cohen G., Rampal V., Aubart-Cohen F., Seringe R., Wicart P. Brachial plexus birth palsy shoulder deformity treatment using subscapularis release combined to tendons transfer. *Orthop. Traumatol.Surg.Res.* 2010;96(4):334-339.
18. Abdel-Ghani H., Hamdy K.A., Basha N., Tarraf Y.N. Tendon transfer for treatment of internal rotation contracture of the shoulder in brachial plexus birth palsy. *J.Hand Surg.Eur.* 2012;37(8):781-786.
19. Ozben H., Atalar A.C., Bilsel K., Demirhan M. Transfer of latissimus dorsi and teres major tendons without subscapularis release for the treatment of obstetrical brachial plexus palsy sequela. *J.Shoulder.Elbow.Surg.* 2011;20(8):1265-1274.
20. Kambhampati S. B., Birch R., Cobiella C., Chen L. Posterior subluxation and dislocation of the shoulder in obstetric brachial plexus palsy. *J Bone Joint Surg Br.* 2006;88(2):213-219.
21. Loudon E.J., Broering C.A., Mehlman C.T., Lippert W.C., Pratt J., King E.C. Meta-analysis of function after secondary shoulder surgery in neonatal brachial plexus palsy. *J.Pediatr.Orthop.* 2013;33(6):656-663.
22. Arnould C., Penta M., Renders A., Thonnard J.L. ABILHAND-Kids: a measure of manual ability in children with cerebral palsy. *Neurology.* 2004;63(6):1045-1052.
23. Amer A., Eliasson A. C., Peny-Dahlstrand M., Hermansson L. Validity and test-retest reliability of Children's Hand-use Experience Questionnaire in children with unilateral cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2015.
24. Skold A., Hermansson L.N., Krumlinde-Sundholm L., Eliasson A.C. Development and evidence of validity for the Children's Hand-use Experience Questionnaire (CHEQ). *Dev.Med.Child Neurol.* 2011;53(5):436-442.
25. Sarac C., Duijnisveld B. J., Weide Av, et al. Outcome measures used in clinical studies on neonatal brachial plexus palsy: A systematic

- literature review using the International Classification of Functioning, Disability and Health. *J Pediatr Rehabil Med*. 2015;8(3):167-186.
26. TNO. TAPQOL, TACQOL, TAAQOL. 2013; https://www.tno.nl/media/5004/vragenlijsten_01032012.pdf. Accessed 12/4/2013.
 27. Varni J. W., Limbers C. A., Burwinkle T. M. Parent proxy-report of their children's health-related quality of life: an analysis of 13,878 parents' reliability and validity across age subgroups using the PedsQL 4.0 Generic Core Scales. *Health Qual Life Outcomes*. 2007;5:2.
 28. Varni J. W., Limbers C. A., Burwinkle T. M. How young can children reliably and validly self-report their health-related quality of life?: an analysis of 8,591 children across age subgroups with the PedsQL 4.0 Generic Core Scales. *Health Qual Life Outcomes*. 2007;5:1.
 29. Varni J. W., Burwinkle T. M., Berrin S. J., et al. The PedsQL in pediatric cerebral palsy: reliability, validity, and sensitivity of the Generic Core Scales and Cerebral Palsy Module. *Dev Med Child Neurol*. 2006;48(6):442-449.
 30. Berrin S. J., Malcarne V. L., Varni J. W., et al. Pain, fatigue, and school functioning in children with cerebral palsy: a path-analytic model. *J Pediatr Psychol*. 2007;32(3):330-337.
 31. Maher C. A., Toohey M., Ferguson M. Physical activity predicts quality of life and happiness in children and adolescents with cerebral palsy. *Disabil Rehabil*. 2016;38(9):865-869.
 32. Varni J.W., Sherman S.A., Burwinkle T.M., Dickinson P.E., Dixon P. The PedsQL Family Impact Module: preliminary reliability and validity. *Health Qual. Life Outcomes*. 2004;2:55.
 33. Partridge C., Edwards S. Obstetric brachial plexus palsy: increasing disability and exacerbation of symptoms with age. *Physiotherapy research international : the journal for researchers and clinicians in physical therapy*. 2004;9(4):157-163.
 34. de Heer C., Beckerman H., Groot V. D. Explaining daily functioning in young adults with obstetric brachial plexus lesion. *Disabil Rehabil*. 2014;1-7.
 35. Kirjavainen M. O., Remes V. M., Peltonen J., et al. Permanent brachial plexus birth palsy does not impair the development and function of the spine and lower limbs. *J Pediatr Orthop B*. 2009;18(6):283-288.
 36. Wijlen-Hempel R, Buitenhuis S.M., Pondaag W., Malessy M. Obstetrisch plexus-brachialisletsel. In: Mijna Hadders-Algra, Karel Maathuis, Robert F. Pangalila, Jules G. Becher, Jan de Moor ed. *Kinderrevalidatie*. 5 ed. Assen: Koninklijke van Gorcum BV; 2015:525-538.
 37. Duijnvisveld B. J., Sarac C., Malessy M. J., Brachial Plexus Advisory Board T. I., Vliet Vlieland T. P., Nelissen R. G. Developing core sets for patients with obstetric brachial plexus injury based on the International Classification of Functioning, Disability and Health. *Bone Joint Res*. 2013;2(6):116-121.
 38. Sarac C., Bastiaansen E., Van der Holst M., Malessy M.J., Nelissen R.G., Vliet Vlieland T.P. Concepts of functioning and health important to children with an obstetric brachial plexus injury: a qualitative study using focus groups. *Dev. Med. Child Neurol*. 2013;55(12):1136-1142.
 39. Bialocerkowski A., O'Shea K., Pin T. W. Psychometric properties of outcome measures for children and adolescents with brachial plexus birth palsy: a systematic review. *Dev Med Child Neurol*. 2013;55(12):1075-1088.
 40. Dy C. J., Garg R., Lee S. K., Tow P., Mancuso C. A., Wolfe S. W. A systematic review of outcomes reporting for brachial plexus reconstruction. *The Journal of hand surgery*. 2015;40(2):308-313.
 41. Chang K.W., Justice D., Chung K.C., Yang L.J. A systematic review of evaluation methods for neonatal brachial plexus palsy. *J. Neurosurg. Pediatr*. 2013.
 42. Pondaag W., van Dijk J. G., Nelissen R. G., Malessy M.J. [Obstetric brachial plexus injury]. *Nederlands tijdschrift voor geneeskunde*. 2014;158:A7145.
 43. Smania N., Berto G., La Marchina E., et al. Rehabilitation of brachial plexus injuries in adults and children. *Eur J Phys Rehabil Med*. 2012;48(3):483-506.
 44. Bosga-Stork I, Schaaf V. Perifeer-neurologische aandoeningen, het obstetrisch plexus brachialis letsel. In: R van Empelen RN-vdS, A Hartman, ed. *Kinderfysiotherapie*. 3 ed. Amsterdam: Reed Business Education; 2103:553-571.
 45. Schaaf VAM, Buitenhuis SM. Wetenschapsloket: Acute plexus letsels. *Nederlands tijdschrift voor kinderfysiotherapie*. 2009;21(59):24-27.
 46. Price A., Tidwell M., Grossman J.A. Improving shoulder and elbow function in children with Erb's palsy. *Semin. Pediatr. Neurol*. 2000;7(1):44-51.
 47. Ramos L. E., Zell J. P. Rehabilitation program for children with brachial plexus and peripheral nerve injury. *Semin Pediatr Neurol*. 2000;7(1):52-57.
 48. Murphy K. M., Rasmussen L., Hervey-Jumper S. L., Justice D., Nelson V. S., Yang L. J. An assessment of the compliance and utility of a home exercise DVD for caregivers of children and adolescents with brachial plexus palsy: a pilot study. *PM & R : the journal of injury, function, and rehabilitation*. 2012;4(3):190-197.
 49. Waters P.M. Update on management of pediatric brachial plexus palsy. *J. Pediatr. Orthop. B*. 2005;14(4):233-244.

50. Yang L. J., Anand P., Birch R. Limb preference in children with obstetric brachial plexus palsy. *Pediatr Neurol.* 2005;33(1):46-49.
51. Strombeck C., Krumlinde-Sundholm L., Remahl S., Sejersen T. Long-term follow-up of children with obstetric brachial plexus palsy I: functional aspects. *Dev.Med.Child Neurol.* 2007;49(3):198-203.
52. Brown T., Cupido C., Scarfone H., Pape K., Galea V., McComas A. Developmental apraxia arising from neonatal brachial plexus palsy. *Neurology.* 2000;55(1):24-30.
53. Berggren J., Baker L. L. Therapeutic application of electrical stimulation and constraint induced movement therapy in perinatal brachial plexus injury: A case report. *J Hand Ther.* 2015;28(2):217-220; quiz 221.
54. Buesch F. E., Schlaepfer B., de Bruin E. D., Wohlrab G., Ammann-Reiffer C., Meyer-Heim A. Constraint-induced movement therapy for children with obstetric brachial plexus palsy: two single-case series. *International journal of rehabilitation research. Internationale Zeitschrift fur Rehabilitationsforschung. Revue internationale de recherches de readaptation.* 2010;33(2):187-192.
55. Justice D., Rasmussen L., Di Pietro M., et al. Prevalence of Posterior Shoulder Subluxation in Children With Neonatal Brachial Plexus Palsy After Early Full Passive Range of Motion Exercises. *PM & R : the journal of injury, function, and rehabilitation.* 2015;7(12):1235-1242.
56. Rasmussen L., Justice D., Chang K. W., Nelson V. S., Yang L. J. Home exercise DVD promotes exercise accuracy by caregivers of children and adolescents with brachial plexus palsy. *PM & R : the journal of injury, function, and rehabilitation.* 2013;5(11):924-930.

