



Universiteit
Leiden
The Netherlands

On outcomes for hemophilia

Balen, E.C. van

Citation

Balen, E. C. van. (2022, November 30). *On outcomes for hemophilia*. Retrieved from <https://hdl.handle.net/1887/3492202>

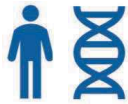
Version: Publisher's Version

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

Downloaded from: <https://hdl.handle.net/1887/3492202>

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

Wat is hemofilie?



Aangeboren stollingsstoornis bij mannen



Bloedingen in gewrichten of bij operaties



Te voorkomen door injecties met stollingseiwit 2-3 keer per week



Toch hebben velen gewrichtsschade door eerdere bloedingen

In 1972, 1978, 1985, 1992, 2001 en in 2018 werd landelijk onderzoek gedaan onder mensen met hemofilie in Nederland



Mensen met hemofilie zijn onder behandeling bij 1 van de 7 academische ziekenhuizen



2192 mannen en jongens werden uitgenodigd

1312 van hen deden mee (respons: 59,9%)



1009 vragenlijsten

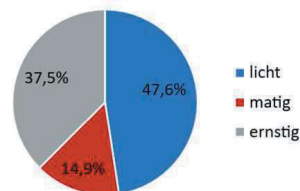


1032 medische dossiers

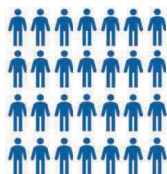
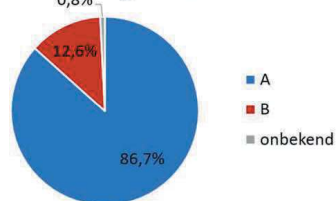


927 bloedafnames

Ernst hemofilie



Type hemofilie



27 deelnemers hebben hiv

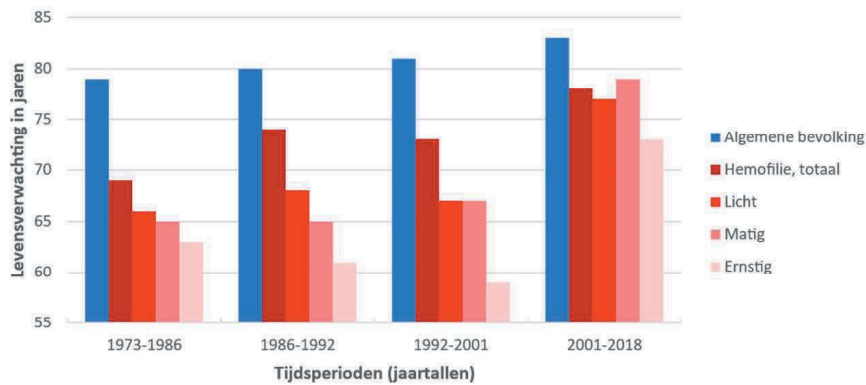
2 Het gemiddeld aantal bloedingen in 2018 voor iemand met ernstige hemofilie

In 1971 waren dat er per jaar **25**

Wat mannen met hemofilie het liefste willen:

Genezing	Normale levensverwachting	Meedoen aan de maatschappij	Minder vaak ernstige bloedingen
Minder werk- of schoolverzuim	Minder chronische pijn	Minder complicaties (remmer, virus, prikproblemen)	
Lichamelijk functioneren op langere termijn	Sociaal functioneren	Geestelijke gezondheid	

Mannen met hemofilie worden tegenwoordig bijna net zo oud als andere Nederlandse mannen...



...al worden vooral mannen met ernstige hemofilie wat minder oud door eerdere besmettingen met hiv en/of hepatitis C.



15-24-jarigen volgen net zo vaak onderwijs als hun leeftijdsgenoten zonder hemofilie. Wel verzuimen ze vaker van school.



Mannen met hemofilie nemen net zo goed deel aan sociale activiteiten als mannen zonder hemofilie.

68,2%

van de mannen met hemofilie heeft betaald werk



Onder Nederlandse mannen zonder hemofilie is dat

73,2%



Portfolio

Courses	year	hours
Several journal clubs, Capita Selecta and Friday lessons	2016-2020	56
Weon pre-conference course big data	2016	4
CS50: Introduction to Computer Science – Harvard University (MOOC)	2016	15
Machine learning for data science and analytics – Columbia EdX	2016	35
Epidemiology: An introduction (Rothman) - LUMC	2016	84
BROK (NFU)	2016	42
NVTH PhD course venous thrombosis	2016	28
Introduction to Quality of Life and other PROs – theory, measurement and applications (ISOQOL pre-conference course)	2016	8
Qualitative research in health care - EpidM	2016	56
Focus groups - Evers Research and training, Rotterdam	2016	28
Writing scientific articles – LUMC/Sanquin/VU	2016	84
Data Management Plan crash course	2017	1
Basic methods and reasoning in biostatistics - LUMC	2017	42
NVTH PhD course Bleeding	2017	28
Clinical epidemiology (Schiermonnikoog) - LUMC	2017	56
Statistical aspects of clinical trials - LUMC	2017	28
Clinical epidemiology (Grobbee) - LUMC	2017	84
IRT and CAT using Concerto - University of Cambridge, UK	2018	28
NVTH PhD course arterial thrombosis	2018	28
Regression analysis - LUMC	2018	42
Young investigators workshop EAHAD	2018	4
Causal inference – Erasmus Summer School (Hernan)	2018	84
Survival analysis - LUMC	2018	42
Meta analysis - LUMC	2019	28
Effective communication for PhDs – Leiden University	2019	8
Supervising working groups – LUMC	2019	12
Advanced methods in epidemiology (Poelgeest) - LUMC	2019	56
Clinimetrics - EpidM	2020	84
BROK (registration renewal)	2020	4

Conference attendance and presentations	Year	hours
Weon (annual epidemiology conference), Wageningen, The Netherlands	2016	20
ECTH, The Hague, The Netherlands	2016	20
Poster presentation ISOQOL, Copenhagen, Denmark	2016	28
Nijmegen Multidisciplinary symposium Hemophilia	2017	8

Poster presentation ISTH Conference, Berlin, Germany	2017	28
3-minute pitch and poster presentation, Bayer Hematology conference, Amsterdam, The Netherlands	2017	16
Poster presentation EAHAD, Madrid, Spain	2018	28
Poster presentation WFH, Glasgow, UK	2018	28
Poster presentation ISTH conference, Melbourne, Australia	2019	28
Poster presentation ISOQOL, San Diego, USA	2019	28
Oral presentation PROMIS annual conference, San Diego, USA	2019	12
Poster presentation Weon, Nijmegen, The Netherlands	2022	28

Teaching and supervision	Year	hours
Academic and Scientific Training Year 1 (AWV1 – medicine)	2016	4
Academic and Scientific Training Year 2 (AWV2 – medicine)	2016	8
Academic and Scientific Training Year 1 (AWV1 – medicine)	2017	12
Academic and Scientific Training Year 2 (AWV2 – medicine)	2017	8
BSc. Student thesis supervision Bridget Baker (health sciences)	2017	24
BSc. Student thesis supervision Marjolein Wesselo (health sciences)	2017	24
Clinical academic research (KWO) – Honours Program medicine	2017	36
SPSS Computer practical Clinical Research in Practice (2x) (CRIP - MSc. biomedical sciences)	2017	8
Health promotion Year 3 (LGB3 - medicine)	2017	12
Academic and Scientific Training Year 1 (AWV1 – medicine)	2018	12
BSc. Student thesis supervision Naweed Shifai (medicine)	2018	6
Questionnaire analysis and design (Capita Selecta presentation)	2018	6
Academic and Scientific Training Year 1 (2x) (AWV1 – medicine)	2019	24
Working group Clinical Research in Practice (CRIP - MSc. biomedical sciences)	2019	4
An introduction to response shift and response shift bias (Capita Selecta presentation)	2019	6

Reviewer activities	Year	hours
Haemophilia	2018	3
Research and Practice in Thrombosis and Hemostasis	2018	3
Journal of Thrombosis and Haemostasis	2018	3
Dutch journal of medicine (NTvG)	2019	3

Awards	Year
Nomination publication prize junior researcher Dutch Society for Epidemiology (VvE)	2022
Nomination Poster Award Dutch Society for Epidemiology (VvE)	2022

LIST OF PUBLICATIONS

This thesis

1. **Erna C van Balen**, Shermarke Hassan, Cees Smit, Mariëtte H Driessens, Erik A M Beckers, Michiel Coppens, Jeroen Eikenboom, H  l  ne L Hooimeijer, Frank W G Leebeek, Eveline P Mauser-Bunschoten, Lize F D van Vulpen, Saskia E M Schols, Frits R. Rosendaal, Johanna G van der Bom, Samantha C Gouw. Socio-economic participation of persons with hemophilia: results from the sixth Hemophilia in the Netherlands study. *Res Pract Thromb Haemost.* 2022;6:e12741
2. **Erna C van Balen**, Lotte Haverman, Shermarke Hassan, Elisabeth M Taal, Cees Smit, Mari  tte H Driessens, Erik A M Beckers, Michiel Coppens, Jeroen Eikenboom, H  l  ne L Hooimeijer, Frank W G Leebeek, Lize F D van Vulpen, Saskia E M Schols, Caroline B Terwee, Frits R Rosendaal, Johanna G van der Bom, Samantha C Gouw. Validation of PROMIS Profile-29 in adults with hemophilia in the Netherlands. *J Thromb Haemost.* 2021 Nov;19(11):2687-2701. doi: 10.1111/jth.15454.
3. **Erna C van Balen**, Brian O'Mahony, Marjon H Cnossen, Gerard Dolan, Victor S Blanchette, Kathelijn Fischer, Deborah Gue, Jamie O'Hara, Alfonso Iorio, Shannon Jackson, Barbara A Konkle, Diane J Nugent, Donna Coffin, Mark W Skinner, Cees Smit, Alok Srivastava, Fred van Eenennaam, Johanna G van der Bom, Samantha C Gouw. Patient-relevant health outcomes for hemophilia care: Development of an international standard outcomes set. *Res Pract Thromb Haemost.* 2021 Mar 6;5(4):e12488. doi: 10.1002/rth2.12488.
4. **Erna C van Balen**, Samantha C Gouw, Jan A Hazelzet, Johanna G van der Bom, Marjon H Cnossen. Defining patient value in haemophilia care. *Haemophilia.* 2018 Jul;24(4):516-8. doi: 10.1111/hae.13550
5. **Erna C van Balen**, Marjolein L Wesselo, Bridget L Baker, Marjan J Westerman, Michiel Coppens, Cees Smit, Mari  tte H Driessens, Frank W G Leebeek, Johanna G van der Bom, Samantha C Gouw. Patient Perspectives on Novel Treatments in Haemophilia: A Qualitative Study. *The Patient.* 2020;13:201-10. doi: 10.1007/s40271-019-00395-6
6. **Erna C van Balen**, Marian Krawczyk, Deborah Gue, Shannon Jackson., Samantha C Gouw, Johanna G van der Bom, Richard Sawatzky. Patient-centred care in haemophilia: Patient perspectives on visualization and participation in decision-making. *Haemophilia* 2019; 25:938-45. doi: 10.1111/hae.13830

Other publications

7. **Erna C van Balen.** Als waardegedreven zorg leidt tot lagere kosten, zal implementatie ervan alleen een succes zijn als het niet leidt tot verlies aan inkomsten voor ziekenhuizen. Promotiestelling. *Ned Tijdschr Geneeskd.* 2022;48

8. Shermarke Hassan, Cees Smit, **Erna C van Balen**, Evelien P Mauser-Bunschoten, Lize F D van Vulpen, Jeroen Eikenboom, Erik A M Beckers, Louise Hooimeijer, Paula F Ypma, Laurens Nieuwenhuizen, Michiel Coppens, Saskia E M Schols, Frank W G Leebeek, Mariëtte H Driessens, Frits R Rosendaal, Johanna G van der Bom, Samantha C Gouw. Gezondheidsuitkomsten van patiënten met hemofilie in Nederland, van 1972 tot 2019. *Nederlands Tijdschrift voor Hematologie.* 2022;5

9. Shermarke Hassan, **Erna C van Balen**, Cees Smit, Eveline P Mauser-Bunschoten, Lize F D van Vulpen, Jeroen Eikenboom, Erik A M Beckers, Hélène L Hooimeijer, Paula F Ypma, Laurens Nieuwenhuizen, Michiel Coppens, Saskia E M Schols, Frank W G Leebeek, Mariëtte H Driessens, Frits R Rosendaal, Johanna G van der Bom, Samantha C Gouw. Health- and treatment outcomes of patients with hemophilia in the Netherlands, 1972-2019. *J Thromb Haemost.* 2021;19:2394-2406. doi: 10.1111/jth.15424

10. Olav Versloot, **Erna C van Balen**, Shermarke Hassan, Saskia E M Schols, Frank W G Leebeek, Jeroen Eikenboom, Michiel Coppens, Lize F D van Vulpen, Cees Smit, Mariëtte H E Driessens, Janjaap van der Net, Samantha C Gouw, Kathelijn Fischer, Haemophilia in the Netherlands 6 steering committee. Similar sports participation as the general population in Dutch persons with haemophilia; results from a nationwide study. *Hemophilia.* 2021;27(5):876-85. doi: 10.1111/hae.14366.

11. Cas J Isfordink, Samantha C Gouw, **Erna C van Balen**, Shermarke Hassan, Erik A M Beckers, Johanna G van der Bom, Michiel Coppens, Jeroen Eikenboom, Kathelijn Fischer, Louise Hooimeijer, Frank W G Leebeek, Frits R Rosendaal, Saskia E M Schols, Cees Smit, Lize F D van Vulpen, Eveline P Mauser-Bunschoten. Hepatitis C virus in hemophilia: Health-related quality of life after successful treatment in the sixth Hemophilia in the Netherlands study. *Res Pract Thromb Haemost.* 2021;17;5(8):e12616. doi: 10.1002/rth2.12616.

12. Shermarke Hassan, Rory C Monahan, Evelien P Mauser-Bunschoten, Lize F D van Vulpen, Jeroen Eikenboom, Erik A M Beckers, Louise Hooimeijer, Paula F Ypma, Laurens Nieuwenhuizen, Michiel Coppens, Saskia E M Schols, Frank W G Leebeek, Cees Smit, Mariëtte H Driessens, Saskia le Cessie, **Erna C van Balen**, Frits R Rosendaal, Johanna G van der Bom, Samantha C Gouw. Mortality, life expectancy, and causes

List of publications

- of death of persons with hemophilia in the Netherlands 2001–2018. *J Thromb Haemost.* 2021;19:645–53. doi: 10.1111/jth.15182
13. **Erna C van Balen**, Marcelo J Wolansky, Tom Kosatsky. Increasing use of pyrethroids in Canadian households: should we be concerned? *Can J Public Health.* 2012 Nov 7;103(6):e404–7. doi: 10.1007/BF03405626.
14. Flemming R Cassee, **Erna C van Balen**, Charanjeet Singh, David Green, Hans Muijsers, Jason Weinstein, Kevin Dreher. Exposure, health and ecological effects review of engineered nanoscale cerium and cerium oxide associated with its use as a fuel additive. *Crit Rev Toxicol.* 2011 Mar;41(3):213–29. doi: 10.3109/10408444.2010.529105.
15. **Erna C van Balen**, Johanneke Caspers, Ton van der Wouden. Modale partikels in het Nederlands als tweede taal: aanwijzingen voor een vaste verwervingsvolgorde. *Internationale Neerlandistiek.* 2010;48:31–40.
16. **Erna C van Balen**, Rebecca Font, N Cavallé, L Font, M Garcia-Villanueva, Y Benavente, P Brennan, S de Sanjose. Exposure to non-arsenic pesticides is associated with lymphoma among farmers in Spain. *Occup Environ Med.* 2006 Oct;63(10):663–8. doi: 10.1136/oem.2005.024026.

Dankwoord

Mijn naam staat weliswaar op dit proefschrift, maar dit resultaat was er nooit geweest zonder de medewerking en steun van een heleboel mensen. Die wil ik hier graag bedanken.

Ten eerste ben ik veel dank verschuldigd aan iedereen met hemofilie die de tijd en moeite nam mee te doen aan HiN-6. Degenen die ik daarnaast persoonlijk heb leren kennen tijdens ALV's van de NVHP, het hemofilie-kampeerevenement en poli's hebben mij bovendien een leerzame inkijk gegeven in hun leven met hemofilie, waarvoor ik erg dankbaar ben. Bijzondere dank ook aan Cees Smit, het geweten en collectief geheugen van de HiN-onderzoeken en altijd bereid vragen te beantwoorden.

Daarnaast wil ik alle coördinatoren, researchverpleegkundigen en andere studiemeewerkers van de deelnemende ziekenhuizen hartelijk bedanken voor hun enorme inzet. Zonder jullie hadden we nooit zo'n mooi onderzoek kunnen opzetten.

Veel dank ook aan mijn promotieteam: prof. dr. F.R. Rosendaal, prof. dr. J.G. van der Bom en dr. S.C. Gouw. Beste Anske en Frits, bedankt dat ik mocht gaan promoveren op de HiN. Beste Samantha, bedankt voor je gedrevenheid. Je legde de lat hoog, en dat heeft een mooi proefschrift opgeleverd.

Shermarke, mijn partner in crime: *we did it!* Het was niet altijd makkelijk, maar het is ons gelukt! Bovendien heb ik gaandeweg een hoop geleerd over de islam. Dank je wel.

Alle stuurgroepleden van HiN: bedankt dat ik met jullie mee mocht kijken tijdens poli's, voor het waardevolle commentaar op artikelen en voor jullie enthousiasme. Jullie *zijn* HiN-6.

Onderzoek kan niet zonder datamanager. Bedankt Karlijn en Liesbeth, voor de klus die jullie hebben helpen klaren.

Shannon, Deb, Sandra, Linda, Claude, Marian and Rick, thank you for welcoming me to at St Paul's in Vancouver. I had the privilege to meet many of your patients and to observe the delivery of hemophilia care in my favourite city. It was a pleasure to work with you.

Marjan, wat begon met een cursus, mondde uit in twee studentenprojecten met bijbehorende publicatie. Bedankt voor alles wat ik van je heb mogen leren over kwalitatief onderzoek. Bridget en Marjolein, ik had me geen betere studenten kunnen wensen om te begeleiden.

Dankwoord

Collega-promovendi van de afdeling klinische epidemiologie en Sanquin: bedankt voor de vele borrels, uitjes naar de Efteling of de Veluwe, Epi-ski, koffiepauzes en pizzalunches; goed voor de soms broodnodige ontspanning en afleiding. Bijzondere dank aan mijn kamergenoten Hugoline, Tim, Deeksha en Inge, die dikwijls de eersten waren om successen en frustraties mee te delen.

Yvonne, Inge en Tamara, als jullie er niet waren, zou er van alles in de soep lopen. Bedankt dat jullie altijd als praktische en gezellige vraagbaak wilden dienen.

Martijn, Anje, Richard, Puck, Edwin en Chelsea, bedankt voor de goede gesprekken aan het kampvuur. Jetteke en de angels, Marjolijn, Cathelijne, Jiska, Annemiek, Eva en Seppe, Roos: dankzij jullie was ik ook regelmatig niet bezig met mijn proefschrift.

Beste oud-collega's van de wetenschapsredactie van de Volkskrant: jullie leerden mij schrijven over wetenschap. Ik weet zeker dat jullie lessen de laatste loodjes van dit proefschrift ten goede zijn gekomen.

(Oud-)collega's van Bureau X en NTVG: fijn dat jullie me de ruimte gaven om in deeltijd te werken, zodat ik daarnaast tijd had om aan dit proefschrift te werken. Bedankt voor jullie interesse.

Jolande, Germen, Joop en Rita, bedankt dat ik af en toe bij jullie in het Drentse land tot rust kon komen. De sauna, gezamenlijke wandelingen in het bos en spelletjes Ticket to Ride hebben mij meer inspiratie, en vooral ook rust, opgeleverd dan jullie vermoeden.

Okki, dank je wel voor het prachtige ontwerp van de cover.

Ben en Marijke, bedankt dat jullie altijd wilden weten hoe het ging met mijn onderzoek.

Suzan, als ik een halve zin zeg, zeg jij de andere helft, en andersom. Wat ben ik blij dat je vandaag naast me staat als paranimf. Vibeke, jouw praktische, maar zeker ook mentale steun in de laatste fase van HiN-6 waren onmisbaar. Bedankt dat je me ook vandaag steunt.

Pap en mam, Lieke en Jean-Paul, Anja, wat fijn dat jullie altijd wilden luisteren naar mijn verhalen, of het nu over p-waarden, stollingsfactoren of onderzoekslogistiek ging. Bedankt voor jullie oprechte nieuwsgierigheid en jullie vragen.

Lieve Tristan, wat beleven wij samen een hoop mooie avonturen. Zonder jou was ik nooit gekomen waar ik nu ben. Niemand inspireert mij meer dan jij. Dank je wel.

Curriculum Vitae

Erna werd geboren in Groningen op 10 oktober 1980. Na het Praedinius Gymnasium studeerde ze milieugezondheidkunde (doctoraal oude stijl) aan de Universiteit Maastricht (2000-2005). Voor haar doctoraalscriptie deed Erna in Barcelona onderzoek naar het risico op lymfomen door blootstelling aan bestrijdingsmiddelen. Daarna volgde ze een masteropleiding Linguistics aan de Universiteit Leiden (2006-2007). Erna werkte achtereenvolgens drie jaar bij het RIVM en drie jaar in Vancouver (Canada) in beleids- en onderzoeksfuncties op het gebied van volksgezondheid en gezonde leefomgeving. Na terugkeer naar Nederland werkte ze ruim een jaar als medisch milieukundig adviseur bij de GGD Rotterdam-Rijnmond. Eind 2015 begon ze met haar promotieonderzoek op de afdeling klinische epidemiologie van het LUMC, waar ze onder leiding van Frits Rosendaal, Anske van der Bom en Samantha Gouw en samen met collega-promovendus Shermarke Hassan de zesde editie van het Hemofilie in Nederland-onderzoek opzette. Ook verbleef Erna opnieuw 3 maanden in Vancouver voor één van de kwalitatieve studies in dit proefschrift. Erna volgde het opleidingstraject tot epidemioloog B en presenteerde haar werk op internationale congressen. Na het vierjarige promotietraject bij het LUMC liep Erna stage bij de wetenschapsredactie van de Volkskrant. Ook werkte ze in deeltijd als onderzoeker bij de GGD Flevoland. Momenteel is Erna nieuwsredacteur bij het Nederlands Tijdschrift voor Geneeskunde.

