

Aus dem Deutschen Rheuma-Forschungszentrum Berlin (DRFZ)
ein Institut der Leibniz-Gemeinschaft

DISSERTATION

**Psychosoziale Kontextfaktoren bei chronischen Erkrankungen im
Kindes- und Jugendalter am Beispiel der
juvenilen idiopathischen Arthritis**

**Psychosocial contextual factors in chronic diseases in childhood and
adolescence using the example of
juvenile idiopathic arthritis**

zur Erlangung des akademischen Grades
Doctor rerum medicinalium (Dr. rer. medic)

vorgelegt der Medizinischen Fakultät
Charité – Universitätsmedizin Berlin

von

Michaela Heinrich-Rohr

aus Berlin

Datum der Promotion: 25. November 2022

Inhaltsverzeichnis

Abbildungsverzeichnis.....	4
Abkürzungsverzeichnis.....	5
Abstract (deutsch)	4
Abstract (englisch).....	6
1. Hintergrund	8
1.1 Gesundheitsbegriff.....	8
1.2 Soziale Determinanten der Gesundheit.....	8
1.3 Chronische Erkrankungen in Deutschland	9
1.4 Chronische Erkrankungen im Kindes- und Jugendalter.....	10
1.5 Krankheitsbewältigung und Unterstützung chronisch kranker Kinder und Jugendlicher	11
2. Juvenile idiopathische Arthritis	12
2.1 Versorgungssituation – aktueller Stand der Forschung	13
2.2 Hinführung zur Fragestellung	13
3. Material und Methoden	14
3.1. Studienkohorte und Studiendesign.....	14
3.2. Instrumente.....	15
<i>Krankheitsbezogene Funktionsfähigkeit.</i>	15
<i>Gesundheitsbezogene kindliche Lebensqualität.</i>	15
<i>Krankheitsaktivität.</i>	16
<i>Familiäre Belastung</i>	16
<i>Inanspruchnahme, unerfüllte Bedarfe und Versorgungsqualität.</i>	16
<i>Sozioökonomischer Status.</i>	17
<i>Migrationsgeschichte</i>	17
<i>Statistik.</i>	17
4. Ergebnisse	18
4.1 Patient:innencharakteristika und Erkrankungsparameter	18
4.2 Medikation und Inanspruchnahme von Gesundheitsdiensten innerhalb der letzten 12 Monate.....	20
4.3 Unerfüllte Bedarfe	22
4.4 Zufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung.....	23
4.5 Prädiktoren für die Inanspruchnahme von multiprofessioneller Betreuung, unerfüllter Bedarfe und der Unzufriedenheit	24
5. Diskussion	27
5.1 Inanspruchnahme multiprofessioneller Betreuung.....	27

5.2 Versorgungsqualität mit Fokus auf Schule und Diagnosestellung	28
5.3 Unerfüllte Bedarfe	29
5.4 Gesundheitsbezogene kindliche Lebensqualität (HRQoL)	30
5.5 Stärken und Limitationen der Studie	30
5.6 Zusammenfassung	31
6. Quellenverzeichnis	32
Eidesstattliche Versicherung	40
Anteilerklärung.....	41
Auszug aus der Journal Summary List	42
Druckexemplar der ausgewählten Publikation	45
Lebenslauf.....	54
Publikationsliste.....	57
Danksagung	59

Abbildungsverzeichnis

Abbildung 1: Verteilung der verordneten Medikation	20
Abbildung 2: Inanspruchnahme von Gesundheitsleistungen und unerfüllte Bedarfe	21
Abbildung 3: Anzahl der unerfüllten Bedarfe bezüglich der nicht- ärztlichen Gesundheitsleistungen	22
Abbildung 4: Zufriedenheit bezüglich der verschiedenen Dimensionen der Gesundheitsversorgung.....	23
Abbildung 5: Multiprofessionelle Betreuung, unerfüllter Bedarf und Unzufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung insgesamt und damit verbundene assoziierende Faktoren (multivariate Analyse)	25

Abkürzungsverzeichnis

bDMARD	biologic Disease-Modifying Anti-Rheumatic Drug
CHAQ	Childhood Health Assessment Questionnaire
CHC-SUN	Child Healthcare Questionnaire on satisfaction, utilisation and needs
cJADAS	clinical Juvenile Arthritis Disease Activity Score
csDMARD	conventional synthetic Disease-Modifying Anti-Rheumatic Drug
DMARD	Disease-Modifying Anti-Rheumatic Drug
EULAR	European League Against Rheumatism
FaBel	Familien-Belastungs-Fragebogen
HRQoL	Health-Related Quality of Life
ICON	Inception Cohort of newly-diagnosed patients with juvenile idiopathic arthritis
ILAR	International League of Associations for Rheumatology
JIA	Juvenile idiopathische Arthritis
MW	Mittelwert
IQR	Interquartilsabstand
NSAR	Nichtsteroidales Antirheumatikum
PedsQL	Pediatric Quality of Life Inventory
RF	Rheumafaktor
RA	Rheumatoide Arthritis
SES	Socioeconomic status
SD	Standardabweichung

Abstract (deutsch)

Hintergrund:

Die juvenile idiopathische Arthritis (JIA) ist eine chronische Erkrankung, die mit Gelenkentzündungen und dem Risiko von Gelenkschäden, Funktionsstörungen und einer verminderten gesundheitsbezogenen Lebensqualität verbunden ist. Auswirkungen auf das geistige und körperliche Wohlbefinden wie auch die Gefahr des Verlusts an sozialer Teilhabe sind Risiken, mit denen die Patient:innen und deren Familien konfrontiert werden können. Daraus folgt, dass die Kinder und Jugendlichen - neben der Herausforderungen bezüglich des Therapiemanagements - unter erschwerten Bedingungen die alltäglichen, altersspezifischen Entwicklungsaufgaben meistern müssen. Hier übernimmt ein ganzheitlicher und patient:innenorientierter Behandlungsansatz, der den psycho-sozialen Kontext berücksichtigt, eine zentrale Rolle.

Zielsetzung. Es wurden die Inanspruchnahme von und Zufriedenheit mit Gesundheitsleistungen sowie unerfüllte Bedarfe von Patient:innen und deren Familien mit neu diagnostizierter JIA untersucht und damit verbundene Korrelate ermittelt.

Methoden. Patient:innen mit JIA wurden in den ersten 12 Monaten nach der Diagnose an 11 großen deutschen kinderrheumatologischen Zentren in eine JIA-Frühkohorte aufgenommen. Die Inanspruchnahme von Gesundheitsdienstleistungen sowie nicht erfüllte Bedarfe als auch die Zufriedenheit mit der medizinischen Versorgung wurden mit dem Fragebogen zur Gesundheitsfürsorge für Kinder zu Zufriedenheit, Nutzung und Bedarfen (CHC-SUN) untersucht. Assoziierte Faktoren wurden unter anderem durch logistische Regression bestimmt.

Ergebnisse. Es wurden Daten von 835 Eltern von Kindern mit JIA in die Analyse einbezogen. Zum Zeitpunkt der Befragung wurden folgende nicht-ärztliche Leistungen am häufigsten in Anspruch genommen: 84% Physiotherapie, 23% Ergotherapie und 17% Telefonberatung. Fast ein Drittel der Familien gab einen unerfüllten Bedarf an. Hier wurde als meist unerfüllter Bedarf die Vermittlung von erkrankungsbezogenen Informationen identifiziert. Der Großteil der Eltern (93%) war mit der Gesundheitsversorgung ihres Kindes insgesamt zufrieden. Dies traf insbesondere auf

das Verhalten der Ärzt:innen zu. Unzufrieden waren sie dagegen mit der benötigten Zeit für die Diagnose und der Betreuungssituation des Kindes in der Schule.

Als Prädiktoren für die Inanspruchnahme multiprofessioneller Betreuung, unerfüllter Bedarfe und Unzufriedenheit mit der Versorgungsqualität konnten Alter sowie Lebensqualität des Kindes als auch familiäre Belastung identifiziert werden.

Fazit. Eine frühzeitige Diagnosestellung, bessere Aufklärung der Eltern bezüglich der Erkrankung und Berücksichtigung des sozialen Umfeldes des Kindes, kann zu einer Verbesserung der Versorgungsqualität führen. Bezüglich der Betreuungssituation chronisch kranker Kinder und Jugendlicher in der Schule besteht Diskussionsbedarf, ob und welche Rolle die Leistungserbringer des Gesundheitswesens hier übernehmen möchten und können.

Abstract (englisch)

Background. Juvenile idiopathic arthritis (JIA) is a chronic, inflammatory, rheumatic disease, which is associated with a decreased health-related quality of life. The effects on mental and physical well-being as well as the danger of losing social participation are risks that patients and their families can be confronted with. As a result, the children and adolescents - in addition to the challenges of therapy management - have to cope with every day, age-specific developmental tasks under difficult conditions. A holistic and patient-oriented treatment approach that takes the psycho-social context into account plays a central role here.

Objective. To explore the utilisation of and satisfaction with healthcare services and unmet needs of patients with early JIA and to identify associated factors.

Methods. Patients with JIA were enrolled in an inception cohort study at 11 large German paediatric rheumatology units within the first 12 months after diagnosis. The utilisation of healthcare services, the satisfaction, as well as unmet needs were examined with the Child Healthcare Questionnaire on Satisfaction, Utilisation and Needs (CHC-SUN). Associated factors were determined by, inter alia, logistic regression.

Results. Data from 835 parents of children with JIA were included in the analysis. At assessment (4.7 months after diagnosis), the following service uses were reported: 84% physiotherapy, 23% ergotherapy, and 17% telephone counselling. Almost one-third of families reported that they had not received the services that they needed, with health education being the most frequently reported need. Most parents (93%) were satisfied with the overall healthcare provided for their children, especially regarding doctors' behavior. However, approximately 1 in 3 consumers were dissatisfied with the time to JIA diagnosis and the understanding and support of their children at school. The lower the child's quality of life, the higher the chance was that the child and the family received multi-professional care, perceived unmet needs, and were dissatisfied with care.

Conclusion. Early diagnosis, better education of parents regarding the disease and consideration of the child's social environment can improve the quality of care for patients - especially at the system level.

One need for discussion with regard to the care situation of chronically ill children and adolescents at school is as to whether and which role the actors of the health care system want to take on or can.

1. Hintergrund

1.1 Gesundheitsbegriff

Gesundheit ist ein mehrdimensionales Konstrukt, das aus unterschiedlichen Perspektiven betrachtet werden kann. Die Zuordnung von „krank“ und „gesund“ kann je nach Perspektive gleich oder verschieden sein. Das Gesundheit nicht ausschließlich über das Nichtvorhandensein von körperlichen Symptomen zu definieren ist, verdeutlicht die Weltgesundheitsorganisation (WHO) in ihrer Begriffsdefinition:

„Die Gesundheit ist ein Zustand des vollständigen körperlichen, geistigen und sozialen Wohlergehens und nicht nur das Fehlen von Krankheit oder Gebrechen.“ [2]

Auch wenn hier ein Idealzustand beschrieben wird, der nur schwer zu erreichen ist, bietet diese Definition jedoch in der Beschreibung und Durchführung unterschiedlicher Gesundheitskonzepte sowie Präventionsmaßnahmen eine wichtige Orientierung. So schließt diese Definition seelisches und psychosoziales Wohlempfinden mit ein und verdeutlicht, dass Gesundheit immer auch sozial bestimmt ist [3]. Aus diesem Grund werden im Konzept des biopsychosozialen Modells u.a. definierte Krankheiten und Symptome nur als ein Teil der Lebenswelt der Patient:innen, eingebettet in weiterer Bedürfnisse und Probleme, begriffen [4]. Einschätzungen zur Lebenszufriedenheit, Wohlbefinden, der Genuss- und Leistungsfähigkeit einer Person finden immer mehr Berücksichtigung in der Patient:innenversorgung und dieser patient:innenorientierte Fokus kann einen wichtigen Beitrag zur Erhöhung der Versorgungsqualität und -zufriedenheit leisten [5].

1.2 Soziale Determinanten der Gesundheit

Zu den wichtigsten sozialen Determinanten der Gesundheit zählen umweltbedingte Faktoren, das Gesundheitssystem, soziodemografische und kulturelle Faktoren, biologische Faktoren, der Lebensstil und sozioökonomische Faktoren [6]. Sie beeinflussen darüber hinaus auch das Gesundheitsverhalten und damit die Inanspruchnahme von Gesundheitsleistungen [7–10]. Der sozioökonomische Status gilt als fundamentale Determinante, weil aus empirischer Sicht ein kausaler

Zusammenhang zwischen sozioökonomischen Unterschieden und gesundheitlicher Ungleichheit besteht [11]. Deutschland gehört zu den wirtschaftlich stärksten Ländern der Welt. Im Jahr 2020 hatte es weltweit das viertgrößte Bruttoinlandsprodukt (BIP) vorzuweisen [12]. Gleichzeitig nimmt jedoch die Ungleichheit in Deutschland laut einer Studie der Hans-Böckler-Stiftung zu. So ist beispielsweise in den alten Bundesländern die Armutsquote im Zeitraum von 2005 bis 2016 um 3,3% auf 17% gestiegen. Als arm gelten in Deutschland Personen, die in ihrem Haushalt mit weniger als 60% des Medianeinkommens (relative Armut) wirtschaften müssen [13]. Gleichzeitig wirkt sich Armut auf Gesundheit aus. So ist es empirisch nachgewiesen, dass Einkommensarmut einen Einfluss auf gesundheitliche Chancen und Risiken hat. Darüber hinaus schätzen die von Armut betroffenen Menschen ihren allgemeinen Gesundheitszustand sowie ihre gesundheitsbezogene Lebensqualität schlechter ein und nehmen seltener Gesundheitsleistungen in Anspruch [14–16]. Der sozioökonomische Status wird jedoch in der Regel nicht nur über das Einkommen, sondern zusätzlich über den Bildungsabschluss und Beruf gemessen und als vertikale Ungleichheit definiert. Der Bildungsabschluss ist hier ein sozioökonomischer Faktor von besonderer Bedeutung, da dieser mit dem Wissensstand bezüglich gesundheitsrelevanter Fragen korreliert und in der Regel neue Informationen besser verarbeitet und umgesetzt werden können und letztendlich daraus resultierend die Inanspruchnahme von Gesundheitsleistungen steigt [11].

1.3 Chronische Erkrankungen in Deutschland

In Deutschland ist die Bezeichnung chronisch krank nicht einheitlich definiert. Allgemein handelt es sich bei einer chronischen Erkrankung um eine andauernde, nicht heilbare Erkrankung, die eine erhöhte Inanspruchnahme von Gesundheitsleistungen zur Folge hat [17]. Gleichzeitig ergeben sich für chronisch kranke Menschen unterschiedliche Rechtsansprüche wie bspw. eine geringere Zuzahlung für verordnete Mittel und Behandlungen nach § 62 Abs. 1 Satz 2 SGB V. Nach der Richtlinie des Gemeinsamen Ausschusses zur Umsetzung der Regelungen dieser Norm liegt eine schwerwiegend chronische Erkrankung vor, wenn aufgrund des körperlichen oder geistigen Zustandes mindestens einmal pro Quartal eine ärztliche Behandlung in Anspruch genommen wird und die Dauer des Behandlungsbedarfs wenigstens ein Jahr (Dauerbehandlung) andauert. Darüber hinaus muss mindestens

eines von weiteren Merkmalen zutreffen, wie bspw. Pflegebedürftigkeit ab Pflegegrad 3 nach dem zweiten Kapitel SGB XI, Grad der Behinderung oder Grad der Schädigungsfolgen von mindestens 60 oder eine Minderung der Erwerbstätigkeit von mindestens 60% oder die Notwendigkeit einer kontinuierlichen medizinischen Versorgung, ohne die nach ärztlicher Einschätzung eine lebensbedrohliche Verschlimmerung, eine Verminderung der Lebenserwartung oder eine dauerhafte Beeinträchtigung der Lebensqualität zu erwarten ist [18].

In einer Versichertenbefragung im Auftrag der Kassenärztlichen Bundesvereinigung im Jahr 2019 gaben 46% der Befragten an, mindestens eine lang andauernde Erkrankung zu haben, die regelmäßig behandelt werden müsste [19].

Im Rahmen der Studie „Gesundheit in Deutschland aktuell 2010“ (GEDA 2010) gaben 42% der Frauen und 35% der Männer an, mindestens an einer chronischen Erkrankung zu leiden. Die Prävalenz steigt mit höherem Alter. Über alle Altersgruppen hinweg geben Frauen signifikant häufiger eine chronische Erkrankung an. Der Anteil der chronisch Erkrankten liegt in der Altersgruppe der 18 bis 29 - Jährigen bei den männlichen Befragten bei 16,3% und bei den weiblichen Befragten bei 18,9% [20].

1.4 Chronische Erkrankungen im Kindes- und Jugendalter

In der Studie zu Gesundheit und Krankheit bei Kindern und Jugendlichen in Deutschland (KiGGS) gaben die Eltern von 16,2 % der 0- bis 17-jährigen Kinder und Jugendlichen an, dass bei ihrem Kind eine chronische Erkrankung vorläge. Bei 3,2% der Kinder läge zusätzlich eine Einschränkung in der Alltagskompetenz vor, die sie daran hindere gleichberechtigt wie ihre Peers am gesellschaftlichen Leben teilzuhaben [21]. Gleichzeitig haben alle Kinder und Jugendlichen verschiedene Entwicklungsaufgaben zu meistern. Der Begriff *Entwicklungsaufgabe* ist eine deutsche Übersetzung von *Developmental Tasks* und wurde von dem Erziehungswissenschaftler und Soziologen Robert J. Havighurst (1900-1991) geprägt. Nach ihm sei die Entwicklung junger Menschen erfolgreich, wenn bestimmte Entwicklungsaufgaben als altersspezifische Herausforderungen wie bspw. Beziehungen zu Gleichaltrigen eingehen zu können oder sozial verantwortlich zu handeln, bewältigt wurden [22]. Diese zu bewältigenden Aufgaben sind von subjektiven Bedürfnissen sowie gesellschaftlichen Ansprüchen geprägt, wobei Letztere - aufgrund sich verändernder Normen und Gesetze - Veränderungen unterliegen können [23].

Mit der Diagnose einer chronischen und/ oder einer schwerwiegend chronischen Erkrankung muss das Kind nicht nur die Herausforderungen des Therapiemanagements meistern, die je nach Diagnose und nach Persönlichkeit unterschiedlich einschränkend erlebt werden können, sondern es muss zusätzlich unter erschwerten Bedingungen die alltäglichen, altersspezifischen Entwicklungsaufgaben meistern [21,24].

Obwohl in Deutschland am 26.03.2009 die UN Konvention über die Rechte von Menschen mit Behinderungen (UN-BRK) in Kraft getreten ist, deren Ziel es nach Artikel 24 unter anderem ist, das Recht von Menschen mit Behinderungen auf Bildung und dies ohne Diskriminierung und auf Grundlage der Chancengleichheit zu ermöglichen, kann noch immer die Diagnose einer chronischen Erkrankung einen negativen Einfluss auf die Bildungsbiografie des Kindes, auf die berufliche Tätigkeit der Sorgeberechtigten sowie die familiäre Belastung insgesamt führen [25–27].

Damit werden chronische Erkrankungen nicht nur eine Herausforderung für die Betroffenen selbst und ihre Eltern, sondern auch für in Institutionen wie bspw. Kindertagesstätten oder Schulen tätige Menschen [27].

1.5 Krankheitsbewältigung und Unterstützung chronisch kranker Kinder und Jugendlicher

Richard Lazarus und Susan Folkman verstehen unter Krankheitsbewältigung die Summe aller adaptiven Prozesse, die dazu führen, bestehende oder erwartete Belastungen als Folge einer Krankheit kognitiv, emotional oder durch konkrete Handlungen aufzufangen, auszugleichen oder zu bewältigen [28]. Gerade der deutsche Begriff der „Krankheitsbewältigung“ lässt annehmen, dass es sich hierbei um einen abgeschlossenen Prozess handeln könnte. Aus diesem Grund wird in diesem Zusammenhang der aus dem englischen Sprachraum stammende Begriff „Coping“ verwendet. Dieser umfasst die Art des Umgangs mit einem als bedeutsam und schwierig empfundenen Lebensereignisses oder einer Erkrankung und wird hier insbesondere bezüglich der Erkrankung als andauernder Prozess verstanden, mit dem Ziel Bewältigungsstrategien zu entwickeln, die im Laufe der Zeit aufgrund sich verändernder Herausforderungen einer möglichen Neujustierung unterlaufen können, jedoch letztendlich zur Stressreduktion und Wiedergewinnung von Kontrolle führen [29].

Kinder und Jugendliche mit chronischen Erkrankungen können in ihrer Teilhabe am gesellschaftlichen Leben und in ihrer Teilhabe an Bildung eingeschränkt sein [27,30]. Gleichzeitig verbringen z.B. ältere Kinder einen großen Anteil ihrer Zeit in der Schule, die ihnen neben der Struktur und Förderung auch die Interaktion zu Gleichaltrigen ermöglicht [31]. Gerade bei schwerwiegend chronisch kranken Kindern und Jugendlichen ist für eine bedarfsgerechte und kindzentrierte Versorgung eine ganzheitliche Betreuung in Form eines multiprofessionellen Teams notwendig, um das Kind und die Familie z.B. bei der Durchsetzung individueller Rechtsansprüche – wie bspw. dem Recht auf Bildung – zu unterstützen [32–34].

2. Juvenile idiopathische Arthritis

Die juvenile idiopathische Arthritis (JIA) stellt eine Gruppe chronischer Erkrankungen dar, mit einer geschätzten Prävalenz von 0,1%, die durch Gelenkentzündungen unbekannter Ätiologie und durch einen Krankheitsbeginn vor dem 16. Lebensjahr gekennzeichnet sind [35,36]. Hierbei weisen alle Formen der JIA ein erhöhtes Risiko für Gelenk- und Gelenkschäden, Funktionsstörungen und eine verminderte gesundheitsbezogene Lebensqualität (HRQoL) auf [36–40]. Zu den definierten Kategorien der JIA zählen die Oligoarthritis (OA), Rheumafaktor positive und negative Polyarthritis (+/- PA), Psoriasisarthritis (PsA), Enthesitis-assoziierte Arthritis (ERA) und Systemische Arthritis (SysJIA) [35]. Die JIA-Kategorien unterscheiden sich in ihrem Phänotyp, zum Teil in ihrem genetischen Hintergrund, in ihrem Verlauf und ihrer Prognose. Um Folgen wie Schmerzen, Behinderungen aufgrund von Gelenkdeformitäten oder -schäden, Wachstumsstörungen, psychische Auswirkungen als auch die Gefahr des Verlusts an sozialer Teilhabe zu vermeiden, ist eine rechtzeitige Diagnose und bedarfsgerechte Gesundheitsversorgung für bestmögliche Behandlungsergebnisse notwendig [41,42].

2.1 Versorgungssituation – aktueller Stand der Forschung

Um bestmögliche Behandlungsergebnisse zu erzielen, spielt der rechtzeitige Zugang zu einer ganzheitlichen multiprofessionellen Versorgung eine zentrale Rolle [43–46]. Für die Eltern stellt die JIA eine große Herausforderung dar, da die Krankheit neben der körperlichen Symptome auch die psychische Gesundheit und die soziale Teilhabe der Patient:innen beeinflussen kann [47–53]. Zum Zeitpunkt der Diagnose beschäftigen sich die Eltern mit Fragen zur Krankheit im Allgemeinen, zur Prognose sowie zu den Behandlungsmöglichkeiten. Darüber hinaus ergeben sich Fragen, die aus rein medizinischer Sicht nicht beantwortet werden können. Beispiele hierfür sind das erhöhte Risiko, die berufliche Tätigkeit eines Elternteils zu reduzieren oder gar ganz aufzugeben, mit all den dazugehörigen finanziellen Konsequenzen für die Familie, um dem notwendigen Therapieaufwand gerecht zu werden oder Schwierigkeiten bezüglich der Betreuungssituation im Kindergarten oder Schule zu begegnen [54]. Darüber hinaus ist auch in der Fachwelt das Interesse einer qualitativ hochwertigen Gesundheitsversorgung, die als angemessene Versorgung definiert ist, auf die Bedürfnisse und Vorlieben der Patient:innen oder der Eltern zugeschnitten ist und die Wahrscheinlichkeit gewünschter Gesundheitsergebnisse erhöht, gestiegen [55,56]. Daher ist es wichtig, ein ganzheitlich ausgerichtetes Unterstützungsangebot zu unterbreiten, damit Problemlagen frühzeitig erkannt und behoben werden können oder Familien ggf. an andere Fachstellen weitervermittelt werden können [57–59]. Insbesondere für Kinder mit JIA wurde eine ganzheitliche Betreuung durch ein multiprofessionelles Team als elementarer Bestandteil der Betreuung von Kindern mit JIA empfohlen [60–63].

2.2 Hinführung zur Fragestellung

Studien zu Inanspruchnahme, unerfüllten Bedarfen und Versorgungsqualität sind rar. Im Jahr 2010 wurden Patient:innen mit neu diagnostizierter JIA in die Kohortenstudie (ICON) aufgenommen, um Behandlungsergebnisse und die Versorgungsqualität unter

aktuellen therapeutischen Bedingungen zu untersuchen [64]. Hierbei wurde von Anfang an die Perspektive der Nutzer:innen mit berücksichtigt.

Ziel der vorliegenden Studie war es, a) festzustellen, welche nicht-ärztlichen Gesundheitsleistungen von den Familien von Kindern und Jugendlichen mit JIA in den ersten Monaten der rheumatologischen Versorgung in Anspruch genommen wurden, b) den unerfüllten Bedarf und den Grad der Unzufriedenheit mit der Versorgung zu ermitteln und c) Faktoren zu identifizieren, die mit einer multiprofessionellen Betreuung, unerfüllten Bedarfen und Unzufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung verbunden sind [1].

3. Material und Methoden

3.1. Studienkohorte und Studiendesign

ICON (Inception Cohort Of Newly-diagnosed patients with juvenile idiopathic arthritis) ist eine laufende multizentrische prospektive Kohortenstudie, bei der Patient:innen, bei denen innerhalb der letzten 12 Monate eine JIA gemäß den Kriterien der International League of Associations for Rheumatology diagnostiziert wurde, eingeschlossen wurden [35]. Beteiligt sind insgesamt 11 kinderrheumatologische Zentren.

Es werden demografische und klinische Daten sowie die Medikation und die Familienanamnese mit standardisierten Fragebögen erfasst, die von Ärzt:innen und Eltern bzw. Patient:innen (ab 8 Jahren) ausgefüllt wurden. Das Follow-up fand im ersten Jahr alle drei Monate und anschließend alle 6 Monate statt.

Neben den JIA-Kernkriterien wie bspw. der Anzahl der aktiven Gelenke und der Gelenke mit eingeschränktem Bewegungsumfang (ROM) wie auch der Gesamtbeurteilung der Krankheitsaktivität durch den:die Ärzt:in und des Wohlbefindens durch den:die Patient:in wurden darüber hinaus auch weitere Kenngrößen wie bspw. die kinsbezogene Lebensqualität, die familiäre Belastung als auch die Inanspruchnahme von Gesundheitsdiensten erfasst. Es wurden in dieser Analyse die Patient:innen einbezogen, von denen die erhobenen Daten zum dreimonatigen Follow-up verfügbar waren.

Einverständniserklärungen von Eltern und Kindern, ab einem Alter von 8 Jahren, lagen vor und die Studie wurde von der Ethikkommission der Charité-Universitätsmedizin Berlin genehmigt und gemäß der Deklaration von Helsinki durchgeführt [1].

3.2. Instrumente

Demografische und klinische Daten wurden von den Eltern der Patient:innen mit JIA und den pädiatrischen Rheumatolog:innen erhoben. Im Folgenden werden die für die vorliegende Studie relevanten Erhebungsinstrumente ausführlicher vorgestellt.

Krankheitsbezogene Funktionsfähigkeit. Die krankheitsbezogene Funktionsfähigkeit von Kindern mit einer JIA wurde mit Hilfe des CHAQ (Childhood Health Assessment Questionnaire) bestimmt [65]. Es handelt sich hierbei um ein generisches Instrument, das die Funktionsfähigkeit im täglichen Leben von Kindern mit JIA in der letzten Woche misst. Der Fragebogen besteht insgesamt aus 30 Items. Bei den Antwortmöglichkeiten handelt es sich um eine vierstufige Likert-Skala (0 = unproblematisch, 1 = leicht behindert, 2 = stark behindert, 3 = unmöglich).

Die folgenden acht Dimensionen werden erfasst: *Anziehen und Körperpflege, Aufstehen, Essen und Trinken, Gehen, Hygiene, Erreichen von Gegenständen, Greifen und Aktivitäten*. Der Index kann einen Wert von null bis drei besitzen. Wobei ein größerer Wert auf eine stärkere Funktionseinschränkung hinweist [54].

Gesundheitsbezogene kindliche Lebensqualität. Unter Verwendung des PedsQL 4.0 (Pediatric Quality of Life Inventory 4.0) wurde die gesundheitsbezogene Lebensqualität (HRQoL) der Patient:innen gemessen [55,66]. Der PedsQL 4.0 ist ein mehrdimensionales und generisches Tool, das von James W. Varni entwickelt wurde, um die Lebensqualität von erkrankten sowie gesunden Kindern aus der Sicht von Eltern sowie Kindern ab fünf Jahren zu erfassen. Das Basismodul besteht aus 23 Likert-skalierten Items, die vier folgende Dimensionen der Lebensqualität abdecken: *physische, emotionale, soziale und schulische Funktionalität*. Der PedsQL 3.0 erfasst als Rheumamodul die krankheitsspezifische Lebensqualität mit 22 Items in folgenden Dimensionen: *Schmerzen, tägliche Aktivitäten, Behandlung, Sorgen und Kommunikation*. Das Rheumamodul PedsQL 3.0 erwies sich als zuverlässiges und nützliches Instrument zur Bewertung der krankheitsspezifischen Lebensqualität von Patient:innen mit JIA [66].

Krankheitsaktivität. Die Krankheitsaktivität wurde unter anderem mit Hilfe des cJADAS10 (clinical Juvenile Arthritis Disease Activity Score) eingeschätzt. Dieser berücksichtigt maximal 10 aktive Gelenke und ein globales Ärztinnen- und Elternurteil (physician's/ parent's global assessment of the patient's disease activity, PhGA/PGA) [67].

Familiäre Belastung. Die familiäre Belastung wurde mit dem Familien-Belastungs-Fragebogen (FaBel) erfasst. Der FaBel misst mit Hilfe von 33 Items auf einer vierstufigen Likert-Skala mit den Antwortmöglichkeiten von 1 "Ich stimme voll und ganz zu" bis 4 "Ich stimme überhaupt nicht zu" die von der Familie wahrgenommene familiäre Belastung. Verwendung findet er, um Auswirkungen chronischer Erkrankungen bei Kindern auf die Familie in den fünf folgenden Dimensionen zu bewerten: *tägliche soziale Belastung der Eltern, persönliche Belastung, Belastung der Geschwister, finanzielle Belastung und Probleme bei der Bewältigung* [68].

Sowie die Subscores jeder dieser fünf Subskalen als auch der Summenscore (basierend auf den 4 Subscores, wobei die Belastung der Geschwister ausgeschlossen ist) können einen Wert zwischen 1 und 4 erreichen, wobei höhere Werte auf eine größere Familienbelastung hinweisen.

Inanspruchnahme, unerfüllte Bedarfe und Versorgungsqualität. Um Aussagen über die Inanspruchnahme von Gesundheitsdiensten, unerfüllte Bedarfe und Zufriedenheit mit der Qualität der Gesundheitsversorgung aus der Perspektive der Eltern treffen zu können, wurde der CHC-SUN (Child Healthcare Questionnaire on satisfaction, utilisation and needs) verwendet [69]. Es handelt sich hierbei um ein Instrument, das aus zwei Modulen besteht. Modul 1 befasst sich mit der Inanspruchnahme ärztlicher und nicht-ärztlicher Gesundheitsleistungen wie bspw. der Physiotherapie, der psychologischen Betreuung, des Sozialdienstes etc. Wenn Eltern angaben, eine bestimmte nicht-ärztliche Gesundheitsleistung zu benötigen, diese aber nicht erhielten, wurde dies als unerfüllter Bedarf definiert. Das Modul 2 erfasst die Zufriedenheit mit der Versorgungsqualität aus der Perspektive der Nutzer:innen und besteht aus insgesamt 26 Items, die die sechs folgenden Dimensionen umfassen: „Information bei der Diagnose“, „Koordination“, „kindzentrierte Versorgung“, „Krankenhausumgebung“, „Verhalten der Ärzt:innen“, und „Versorgung in der Schule“. Ein Item erfragt global die allgemeine Zufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung.

Sozioökonomischer Status. Zur Berechnung des sozioökonomischen Status (SES) wurde ein etablierter und von Lampert et al. entwickelter deutscher mehrdimensionaler aggregierter Index verwendet [70]. Der SES setzt sich aus den drei folgenden Indikatoren zusammen: Höchste schulische und berufliche Qualifikation, höchster Berufsstatus und Netto-Äquivalenzeinkommen der Eltern. Wobei zur Bestimmung des Bildungsniveaus der höchste Abschluss des jeweiligen Elternteils verwendet wurde. Da in der ICON-Studie der Berufsstatus der Eltern nicht erhoben wurde, ist die Berechnung des Index dahin geändert worden, dass er nur auf dem Bildungsniveau der Eltern und dem Haushaltsnettoeinkommen basiert. Der Index kann einen Wert von zwei bis 14 erreichen. Wobei der SES bei Werten bis 6,55 als niedrig, bis 12,1 als moderat und bei Werten von über 12,1 als hoch definiert wurde.

Migrationsgeschichte. Von einer Patient:in mit Migrationsgeschichte wurde ausgegangen, wenn mindestens ein Elternteil nicht in Deutschland geboren wurde.

Statistik. Mit Hilfe der deskriptiven Statistik wurde die Verteilung der Daten beschrieben. Als Maße der zentralen Tendenz wurden der Mittelwert oder der Median mit dem dazugehörigen Streuungsmaß (Standardabweichung [SD] oder Interquartilsbereich [IQR]) verwendet. Für die Feststellung von signifikanten Unterschieden zwischen der JIA-Kategorien bezüglich Krankheitsparameter, Häufigkeit der Inanspruchnahme von Gesundheitsleistungen und wahrgenommenen unerfüllten Bedarfen, wurden eine univariable lineare Regressionsanalyse für kontinuierlich verteilte Variablen und der Chi-Quadrat-Test für kategoriale Variablen durchgeführt.

Unter Verwendung der logistischen Regressionsanalyse wurde untersucht, inwiefern das Geschlecht, das Alter, Migrationsgeschichte, die JIA-Kategorie, der SES, die familiäre Belastung und die HRQoL (PedsQL) als unabhängige Variablen, die Inanspruchnahme von multiprofessioneller Betreuung, unerfüllte Bedarfe (mindestens ein unerfüllter Bedarf) und die Unzufriedenheit mit der Versorgung insgesamt (nicht zufrieden oder teilweise zufrieden) als Zielvariablen beeinflussen. Die Regressionsanalyse fand anhand der Einschlußmethode statt. Die Auswahl der unabhängigen Variablen erfolgte literaturgeleitet. Die geltenden p-Werte von $< 0,05$

sind exploratorisch zu verstehen. Daher wurde von einer Bonferroni-Korrektur abgesehen.

Das Signifikanzniveau betrug 5% und die Analysen wurden mit IBM® SPSS Statistics Version 20 (SPSS Inc., IBM Company, Chicago, Illinois, USA) durchgeführt.

4. Ergebnisse

4.1 Patient:innencharakteristika und Erkrankungsparameter

Von insgesamt 954 JIA-Patient:innen, die an der ICON-Studie teilgenommen haben, konnten in dieser Analyse 835 (87,5%) berücksichtigt werden.

Die mediane Dauer vom Zeitpunkt des Auftretens der Symptome bis zur Diagnose betrug 2,9 Monate (IQR 1,0–7,0) und die mediane Dauer von der Diagnose bis zur Behandlung weitere 4,7 Monate (IQR 3,6 – 7,4). Die mediane Erkrankungsdauer lag bei 8,8 Monaten (IQR 6,1 – 14,0). Mit 46,6% war der Anteil der Patient:innen mit einer Oligoarthritis am größten.

Die durchschnittliche Anzahl der aktiven entzündlichen Gelenke betrug 4,3 (SD 7,2) und der cJADAS-10 9,8 (SD 6,3) und die durchschnittliche krankheitsbezogene Funktionsfähigkeit (CHAQ) lag bei 0,38 (SD 0,58). Weitere Patient:innencharakteristika sind der Tabelle 1 zu entnehmen.

Tabelle 1: Patient:innencharakteristika zum Zeitpunkt des Studieneinschlusses.**Modifiziert nach (1).**

N	835
weiblich / männlich, n (%)	566 (67,8) / 269 (32,2)
Alter zum Zeitpunkt der Diagnose (Jahre), Median (IQR)	6,9 (3,0 – 11,8)
Anteil der Patient:innen mit Migrationsgeschichte, n (%)	174 (20,8)
Sozioökonomischer Status (Range 2-14), Mean (SD)	8,7 (3)
niedrig, n (%)	252 (31,5)
moderat, n (%)	393 (49,2)
hoch, n (%)	154 (19,3)
JIA Kategorie	
Oligoarthritis, n (%)	389 (46,6)
RF-negative Polyarthritis, n (%)	228 (27,3)
RF-positive Polyarthritis, n (%)	13 (1,6)
Psoriasisarthritis, n (%)	32 (3,8)
Enthesitis-assoziierte Arthritis, n (%)	87 (10,4)
Systemische Arthritis, n (%)	29 (3,5)
Undifferenzierte Arthritis, n (%)	57 (6,8)
Funktionsstatus (CHAQ, Spannweite 0-3), Mean (SD)	0,38 (0,58)
Gesundheitsbezogene kindliche Lebensqualität (PedsQL 4.0, 3.0, Spannweite 0-100)	
Physische Gesundheit Summenscore, Mean (SD)	65.9 (24,7)
Psychische Gesundheit Summenscore, Mean (SD)	73.9 (17,3)
Summenscore gesamt, Mean (SD)	71.3 (18,5)
Familiäre Belastung (FaBel, Spannweite 1-4, 4 höchste Belastung)	
Tägliche soziale Belastung der Eltern, Mean (SD)	1,9 (0,8)
persönliche Belastung	1,7 (0,6)
Belastung der Geschwister	1,4 (0,5)
finanzielle Belastung	1,6 (0,6)
Probleme bei der Bewältigung	1,6 (0,4)
Summenscore gesamt, Mean (SD)	1,7 (0,4)

IQR: Interquartilsabstand; Mean: arithmetisches Mittel; SD: Standardabweichung; JIA: juvenile idiopathische Arthritis; RF: Rheumafaktor; CHAQ: Childhood Health Assessment Questionnaire; PedsQL: Pediatric Quality of Life Inventory; FaBel: Familien-Belastungs-Fragebogen

4.2 Medikation und Inanspruchnahme von Gesundheitsdiensten innerhalb der letzten 12 Monate

Da die Patient:innen bei Einschluss der Studie sich bereits in einem pädiatrischen Rheumazentrum in Behandlung befanden, hatten demnach alle bereits eine spezielle Betreuung erhalten. Ungefähr zwei Drittel der Familien (68%) gaben an, dass es nicht schwierig sei, Zugang zu pädiatrischer rheumatologischer Versorgung zu erhalten. Dagegen empfanden dies 12% als schwierig bis äußerst schwierig.

Alle Patient:innen nahmen in den letzten 12 Monaten Medikamente ein. Zum Zeitpunkt der Befragung lag der Anteil Behandlung durch Medikation bei 85%. In Abbildung 1 ist die Verteilung der eingesetzten Medikamentengruppen zu finden.

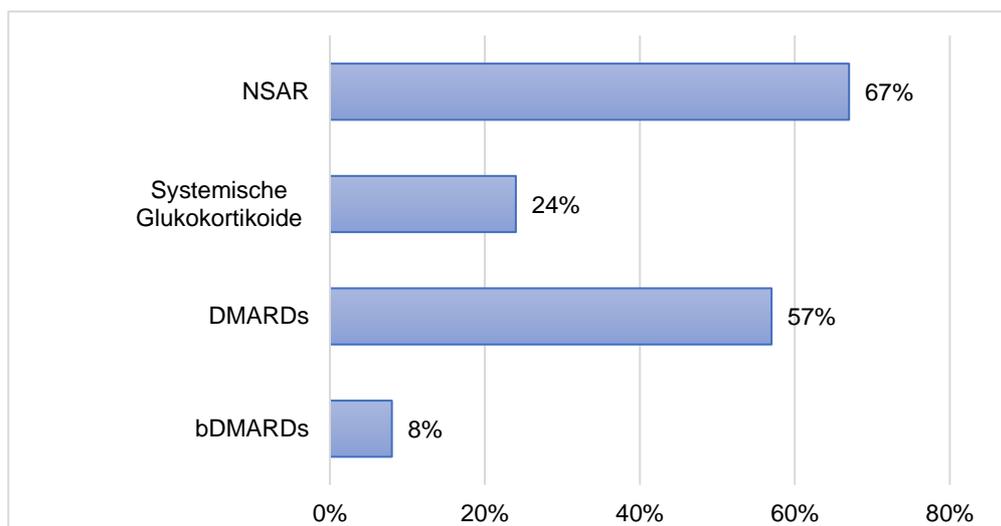


Abbildung 1: Verteilung der verordneten Medikation zum Zeitpunkt der Untersuchung; Mehrfachnennungen möglich (eigene Darstellung)

Die meisten Familien (86%) gaben an, keine Schwierigkeiten beim Erhalt von Rezepten für die Medikamente zu haben. Bezüglich der Zufriedenheit der aktuell verordneten Medikation gab fast ein Viertel der Familien an, eher unzufrieden zu gewesen zu sein (6,1% nicht zufrieden, 17,5% teilweise zufrieden). Die von den Eltern und erkrankten Kindern in Anspruch genommenen nicht-ärztlichen Gesundheitsleistungen sind in Abbildung 2 zu entnehmen.

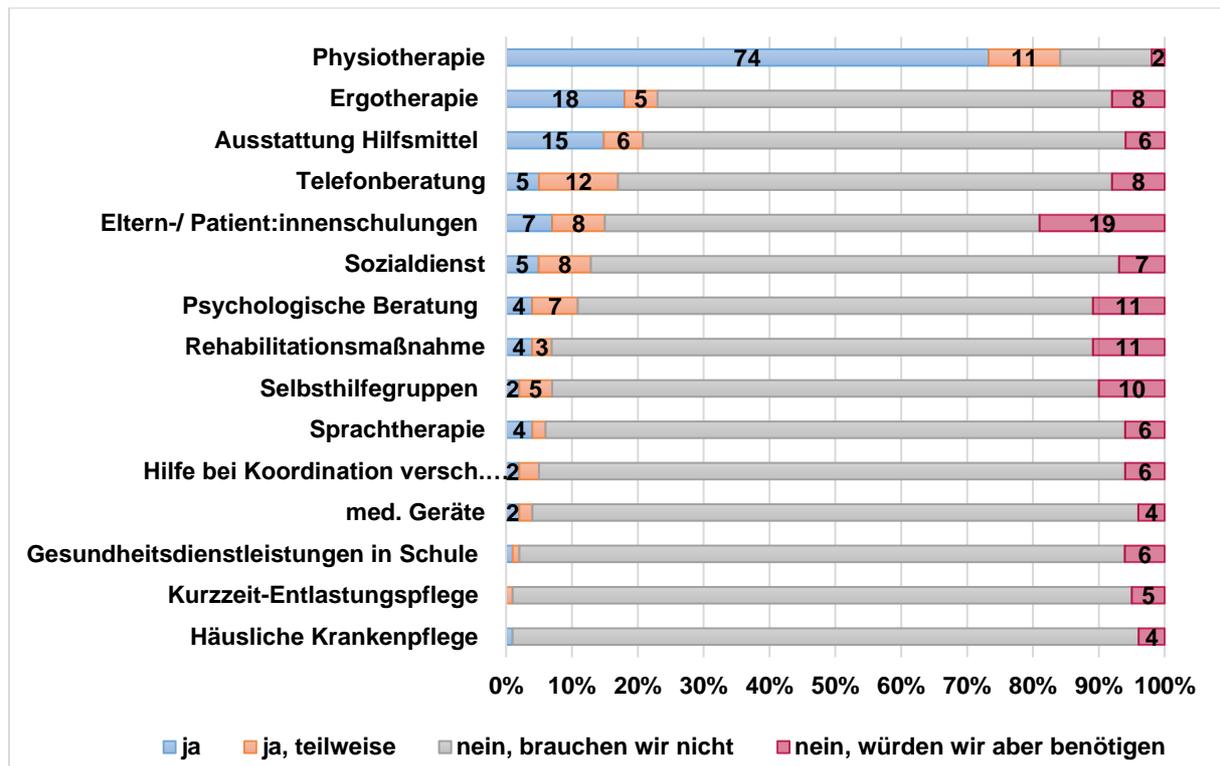


Abbildung 2: Inanspruchnahme von Gesundheitsleistungen sowie unerfüllte Bedarfe. Modifiziert nach (1).

87% der Familien (n=726) nahmen mindestens eine der 15 angegebenen Gesundheitsleistungen und 50% (420) eine multiprofessionelle Betreuung in Anspruch. Im Durchschnitt nahmen Familien zwei (SD 1,8) nicht-ärztliche Leistungen in Anspruch, wobei Kinder mit polyartikulärer oder systemischer JIA die höchste Rate an Inanspruchnahme unter allen JIA-Patient:innen aufwiesen.

4.3 Unerfüllte Bedarfe

Wenn die Eltern mindestens eine bestimmte nicht-ärztliche Gesundheitsleistung aus ihrer Sicht her benötigen, diese aber nicht erhielten, wurde dies als unerfüllter Bedarf definiert. Einen unerfüllten Bedarf hatten demnach 31% der Familien (n = 259). Die Anzahl der von den Eltern angegebenen unerfüllten Bedarfe sind der Abbildung 3 zu entnehmen.

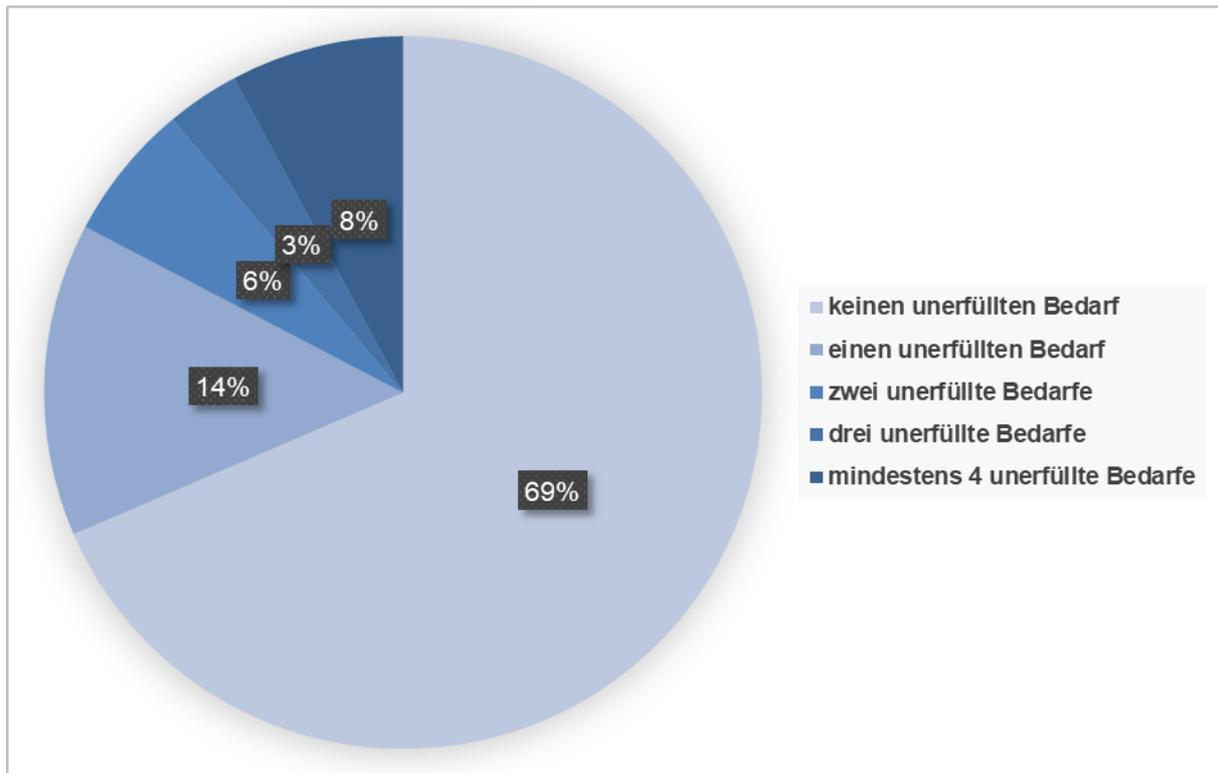


Abbildung 3: Anzahl der unerfüllten Bedarfe bezüglich der nicht- ärztlichen Gesundheitsleistungen aus Sicht der Eltern mit der Antwortkategorie “nein, würden wir aber benötigen” (eigene Darstellung)

Die durchschnittliche Anzahl der angegebenen unerfüllten Bedarfe betrug 1,0 (SD 2,5) und war bei Patient:innen mit RF positiver polyartikulärer JIA mit 1,3 (SD 1,8) und systemischer JIA mit 1,4 (SD 3,7) am höchsten. Der Abbildung 2 ist zu entnehmen, dass die häufigsten unerfüllten Bedarfe im Zusammenhang mit der Vermittlung von erkrankungsbezogenen Informationen, Rehabilitationsleistungen und psychologischer Beratung genannt wurden.

4.4 Zufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung

Die Zufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung wurde mit dem CHC-SUN gemessen, wobei die sechs verschiedenen Dimensionen und die globale Zufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung insgesamt der Abbildung 4 zu entnehmen sind.

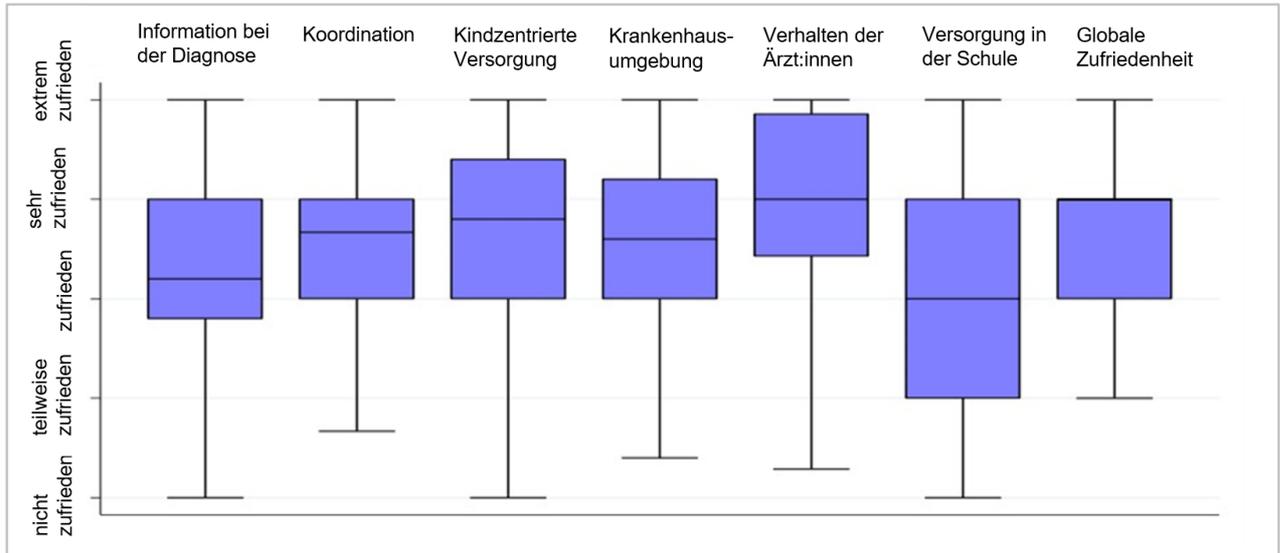


Abbildung 4: Zufriedenheit bezüglich der verschiedenen Dimensionen der Gesundheitsversorgung. Modifiziert nach (1).

Die Eltern waren bezüglich aller Dimensionen eher bis sehr zufrieden - ausgenommen der Betreuungssituation in der Schule. Bei Letzterem waren die Eltern am unzufriedensten. Dagegen waren die Eltern besonders zufrieden mit dem Verhalten der Ärzt:innen und der kindgerechten Betreuung.

Ergebnis der Auswertung aller 26 Items war, dass 78% der Eltern besonders zufrieden waren mit dem Fachwissen und 79% mit dem Verhalten der Ärzt:innen sowie 72% mit der Wertschätzung der elterlichen Fähigkeiten durch das medizinische Personal. Dagegen waren 39% der Familien besonders unzufrieden mit der Dauer der Diagnosestellung der JIA und 36% mit der Versorgungssituation am Ort Schule – insbesondere mit dem Wissen und der Rücksichtnahme auf den Zustand des Kindes von Seiten der Lehrer:innen.

Zwischen Patient:innen mit verschiedenen JIA-Kategorien gab es bezüglich der Zufriedenheit keine signifikanten Unterschiede - mit Ausnahme der Eltern von Kindern mit systemischer Arthritis. Die Eltern dieser Kinder waren häufiger als die anderen

unzufrieden mit der Art und Weise, wie zum Zeitpunkt der Diagnose auf ihre Gefühle eingegangen worden ist ($n = 13/28$, 46,4% gegenüber $n = 168$, 21,4%, $p = 0,002$).

In Bezug auf die globale Zufriedenheit gaben nur 7% der Eltern an, mit der Gesamtversorgung ihrer Kinder eher unzufrieden (unzufrieden oder teilweise zufrieden) zu sein. Der überwiegende Teil war mit 60 % sehr oder extrem mit der Gesundheitsversorgung zufrieden.

4.5 Prädiktoren für die Inanspruchnahme von multiprofessioneller Betreuung, unerfüllter Bedarfe und der Unzufriedenheit

Mit Hilfe der logistischen Regressionsanalyse konnten verschiedene Prädiktoren für die Zielvariablen „Inanspruchnahme multiprofessioneller Betreuung“, „unerfüllter Bedarf“ und „Unzufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung insgesamt“ identifiziert oder ausgeschlossen werden. So gab es einen signifikanten Zusammenhang zwischen dem Alter und der HRQoL der Patient:innen mit der Inanspruchnahme einer multiprofessionellen Betreuung. Mit steigendem Alter und höheren HRQoL der Patient:innen sank jeweils die Häufigkeit der Inanspruchnahme einer multiprofessionellen Betreuung (OR 0,95, $p = 0,01$).

Je jünger das Kind war (OR 0,95, $p = 0,018$), je größer die familiäre Belastung war (OR 3,66, $p < 0,001$) und je niedriger die HRQoL des Kindes war (OR 0,97, $p < 0,001$), desto höher war die Häufigkeit der angegebenen unerfüllten Bedarfe. Die HRQoL des Kindes (OR 0,97, $p = 0,004$) und das weibliche Geschlecht (OR 2,3, $p = 0,027$) waren signifikant mit der Unzufriedenheit bezüglich der Gesundheitsversorgung im Allgemeinen assoziiert.

Im Gegensatz dazu konnten weder Migrationsgeschichte des Kindes noch der SES als Prädiktoren für die Inanspruchnahme von multiprofessioneller Betreuung, unerfüllte Bedarfe oder Unzufriedenheit mit der Versorgung insgesamt festgestellt werden. Weitere Details sind der Tabelle 2 zu entnehmen.

Tabelle 2: Multiprofessionelle Betreuung, unerfüllter Bedarf und Unzufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung insgesamt und damit verbundene assoziierende Faktoren (multivariate Analyse). Modifiziert nach (1).

	Multiprofessionelle Betreuung (Nutzung von mindestens zwei der 15 Dienste)			Unerfüllter Bedarf (mindestens eine der 15 Leistungen nicht erhalten, obwohl Bedarf angegeben wurde)			Unzufriedenheit mit der Versorgung im Allgemeinen (nicht zufrieden oder teilweise zufrieden)		
	Nein	Ja	Multivariat	Nein	Ja	Multivariat	Nein	Ja	Multivariat
			OR (95%KI), p-Wert			OR (95%KI), p-Wert			OR (95%KI), p-Wert
Weibliches Geschlecht	273 (67.7%)	286 (68.1%)	0.97 (0.67 - 1.39), 0.851	389 (69.0%)	170 (65.6%)	0.90 (0.60 - 1.33), 0.585	502 (66.8%)	44 (77.2%)	2.30 (1.10 - 4.82), 0.027
Alter, Mean (SD)	8.2 (4.9)	7.6 (4.8)	0.95 (0.92 - 0.99), 0.010	8.0 (4.9)	7.5 (4.8)	0.95 (0.92 - 0.99), 0.018	7.9 (4.8)	8.9 (5.0)	1.05 (0.99 - 1.12), 0.111
<6 Jahre	170 (42.2%)	191 (45.5%)		238 (42.2%)	123 (47.5%)		325 (43.2%)	23 (40.4%)	
6 bis <12 Jahre	115 (28.5%)	133 (31.7%)		176 (31.2%)	72 (27.8%)		234 (31.1%)	15 (26.3%)	
12 bis 18 Jahre	118 (29.3%)	96 (22.9%)		150 (26.6%)	64 (24.7%)		193 (25.7%)	19 (33.3%)	
Migrationsgeschichte	93 (24.0%)	75 (18.8%)	0.74 (0.49 - 1.13), 0.161	122 (22.9%)	46 (18.2%)	0.64 (0.40 - 1.01), 0.053	155 (21.7%)	10 (17.5%)	0.90 (0.44 - 1.84), 0.767
SES Score^a, Mean (SD)	8.6 (3.1)	8.8 (3.0)	1.05 (1.00 - 1.11), 0.062	8.7 (3.0)	8.7 (3.1)	1.03 (0.97 - 1.09), 0.285	8.7 (3.1)	8.3 (2.9)	0.98 (0.89 - 1.07), 0.641
Niedrig	112 (28.9%)	104 (25.9%)		142 (26.2%)	74 (30.1%)		197 (27.3%)	19 (34.6%)	
Moderat	177 (45.6%)	180 (44.9%)		254 (46.8%)	103 (41.9%)		321 (44.5%)	26 (47.3%)	
Hoch	99 (25.5%)	117 (29.2%)		147 (27.1%)	69 (28.1%)		204 (28.3%)	10 (18.2%)	
JIA Kategorien									
Systemische Arthritis	15 (3.7%)	14 (3.3%)	0.66 (0.33 - 1.34), 0.250	19 (3.4%)	10 (3.9%)	0.62 (0.26 - 1.48), 0.285	25 (3.3%)	3 (5.3%)	2.44 (0.73 - 8.17), 0.149
Oligoarthritis	219 (54.3%)	163 (38.8%)	0.59 (0.40 - 0.86), 0.005	281 (49.8%)	101 (39.0%)	0.59 (0.41 - 0.86), 0.006	348 (46.3%)	26 (45.6%)	1.11 (0.59 - 2.06), 0.750
Psoriasisarthritis	13 (3.2%)	19 (4.5%)	1.20 (0.58 - 2.48), 0.622	21 (3.7%)	11 (4.3%)	0.80 (0.39 - 1.64), 0.535	31 (4.1%)	1 (1.8%)	0.31 (0.06 - 1.73), 0.181
Enthesitis-assoziierte Arthritis	48 (11.9%)	38 (9.1%)	0.69 (0.41 - 1.16), 0.158	58 (10.3%)	28 (10.8%)	0.98 (0.57 - 1.66), 0.926	78 (10.4%)	8 (14.0%)	1.96 (0.81 - 4.71), 0.135
RF-positive Polyarthritis	3 (0.7%)	10 (2.4%)	2.47 (0.63 - 9.67), 0.193	5 (0.9%)	8 (3.1%)	3.26 (1.07 - 9.90), 0.037	8 (1.1%)	3 (5.3%)	3.07 (0.69 - 13.62), 0.140
RF-negative Polyarthritis	78 (19.4%)	148 (35.2%)	1.40 (0.93 to 2.11), 0.105	146 (25.9%)	80 (30.9%)	0.91 (0.61 - 1.35), 0.637	207 (27.5%)	15 (26.3%)	0.77 (0.37 - 1.61), 0.495

Familiäre Belastung^b (FaBel)									
Belastung Summenscore, Mean (SD)	1.6 (0.3)	1.8 (0.4)	1.55 (0.92 - 2.60), 0.099	1.6 (0.3)	1.9 (0.4)	3.66 (2.23 - 6.01), <0.001	1.7 (0.4)	1.8 (0.5)	1.79 (0.73 - 4.42), 0.207
Tägliche, soziale Belastung, Mean (SD)	1.5 (0.3)	1.7 (0.5)		1.5 (0.3)	1.8 (0.5)		1.6 (0.4)	1.8 (0.5)	
Belastung der Geschwister, Mean (SD)	1.3 (0.4)	1.5 (0.5)		1.3 (0.4)	1.6 (0.5)		1.4 (0.5)	1.6 (0.7)	
Finanzielle Belastung, Mean (SD)	1.5 (0.5)	1.8 (0.7)		1.5 (0.6)	1.9 (0.7)		1.6 (0.6)	1.8 (0.9)	
Persönliche Belastung, Mean (SD)	1.6 (0.6)	1.9 (0.7)		1.6 (0.6)	2.0 (0.7)		1.7 (0.6)	1.9 (0.8)	
Probleme bei der Bewältigung, Mean (SD)	2.0 (0.9)	1.8 (0.6)		1.9 (0.8)	1.9 (0.7)		1.9 (0.8)	1.9 (0.8)	
Gesundheitsbezogene kindliche Lebensqualität^c (PedsQL 4.0)									
PedsQL Summenscore, Mean (SD)	86.5 (12.1)	75.8 (16.4)	0.95 (0.94 - 0.96), <0.001	84.3 (13.3)	74.3 (17.2)	0.97 (0.95 - 0.98), <0.001	81.9 (14.5)	72.3 (18.8)	0.97 (0.95 - 0.99), 0.004
Psychosoziale Gesundheit Summenscore, Mean (SD)	86.6 (12.1)	76.8 (16.3)		84.7 (13.5)	75.1 (16.5)		82.4 (14.4)	73.5 (18.8)	
Physische Gesundheit Summenscore, Mean (SD)	86.5 (14.9)	74.3 (20.6)		83.6 (16.7)	73.3 (21.6)		81.1 (18.3)	71.0 (22.8)	

SES: Sozioökonomischer Status; FaBel: Familien-Belastungs-Fragebogen; PedsQL: Pediatric Quality of Life Inventory; JIA: juvenile idiopathische Arthritis; RF: Rheumafaktor; OR: Odds Ratio; KI: Konfidenzintervall;

a) SES: Spannweite beträgt 2-14, wobei hohe Werte einen höheren sozioökonomischen Status implizieren; b) FaBel: Die jeweiligen Summenscores können Werte von 1 bis 4 einnehmen (1=keine Belastung; 4=starke Belastung);

c) PedsQL: Spannweite beträgt 0-100, wobei hohe Werte eine höhere gesundheitsbezogene Lebensqualität indizieren.

5. Diskussion

Eine qualitativ hochwertige Gesundheitsversorgung ist definiert als angemessene Versorgung, die auf die Bedürfnisse und Vorlieben der Patient:in oder der Eltern zugeschnitten ist und zu den bestmöglichen Ergebnissen führt [55]. Hierbei spielt die multiprofessionelle Betreuung eine entscheidende Rolle [60–63]. Bei dieser in Deutschland erstmalig durchgeführten multizentrischen und prospektiven Beobachtungsstudie bei Kindern mit neu diagnostizierter JIA, an der insgesamt 835 beteiligt waren, konnten keine Ungleichheiten bezüglich des Zugangs zu und der Inanspruchnahme von nicht-ärztlichen Gesundheitsleistungen in Abhängigkeit von vorhandener Migrationsgeschichte oder des sozioökonomischen Status des Kindes festgestellt werden. Des Weiteren konnte eine hohe Zufriedenheit mit zahlreichen Gesundheitsleistungen, die in den ersten Monaten der spezialisierten Pflege in Anspruch genommen wurden, festgestellt werden. Jedoch konnten auch aus der Perspektive der Eltern wahrgenommene unerfüllte Bedarfe und Unzufriedenheit mit bestimmten Aspekten der medizinischen Versorgung identifiziert werden [1]. Diese Erkenntnisse in der Patient:innenversorgung zu berücksichtigen, ist wichtig, da die Behandlungsergebnisse davon abhängig sind [55,69].

5.1 Inanspruchnahme multiprofessioneller Betreuung

Die Studienlage bezüglich der Inanspruchnahme und Zufriedenheit von nicht-ärztlichen Gesundheitsleistungen sowie deren Auswirkungen auf den Erkrankungsverlauf in der kinderrheumatologischen Versorgung sind rar. In einer Studie von Van Dijkhuizen et al. wurden in 23 Ländern unter anderem die Inanspruchnahme nicht-ärztlicher Gesundheitsleistungen untersucht [71]. In Bezug auf die Inanspruchnahme von Ergotherapie und Sozialberatung waren die Ergebnisse mit der vorliegenden Studie vergleichbar [1]. Physiotherapie hingegen wurde mit 83,9% deutlich häufiger und psychologische Beratung mit 10,7% deutlich seltener als in vorliegender Studie beansprucht. Die höhere Inanspruchnahme der Physiotherapie in vorliegender Kohorte lässt sich durch die höhere Nachfrage zu Beginn der Krankheit erklären. Wie zu erwarten, haben die Patient:innen mit der höchsten Krankheitsaktivität oder mit den Erkrankungen größter Einschränkungen, nämlich der polyartikulären und systemischen JIA, eher nicht-ärztliche Dienste in Anspruch genommen.

Des Weiteren gaben die Eltern einen zusätzlichen Bedarf an zusätzlicher Unterstützung wie bspw. der psychosozialen Beratung und Selbsthilfegruppen an [1]. Dies unterstreicht, was auch andere Studien belegen, dass die Gesundheitsversorgung von chronisch kranken Kindern multiprofessionell und patientenorientiert gestaltet werden sollte [54–59,72], sodass von einem Verbesserungsbedarf auch in der kinderrheumatologischen Versorgung ausgegangen werden darf. Einen wichtigen Beitrag könnten hier spezialisierte Pflegekräfte leisten. In einer randomisierten Cross-over-Studie in der Schweiz wurde gezeigt, dass sich regelmäßige individualisierte Unterstützung und Gesundheitsinformationen durch spezialisierte Pflegefachkräfte positiv unter anderem auf die Zufriedenheit der Eltern und Patient:innen auswirkten [73].

5.2 Versorgungsqualität mit Fokus auf Schule und Diagnosestellung

In Bezug auf die Qualität der Gesundheitsversorgung waren die Eltern mit dem Verhalten der Ärzt:innen und der kindgerechten Betreuung am zufriedensten. Besonders unzufrieden waren sie dagegen mit der Dauer der Diagnosestellung und der Betreuungssituation des Kindes in der Schule [1].

Versorgungssituation in der Schule

Bezüglich der Versorgungssituation im Bildungsbereich sind negative Auswirkungen einer nicht-bedarfsgerechten Begleitung des chronisch kranken Kindes in der Schule oder im Kindergarten auf das geistige und körperliche Wohlbefinden sowie auf die Familie insgesamt bekannt [74–76]. So hat z.B. Bouaddi et al. in einer marokkanischen Studie gezeigt, dass Kinder mit einer JIA deutlich häufiger Fehlzeiten aufweisen, als Kinder ohne JIA. Hier hatten die Kinder mit JIA signifikant häufiger Fehltage in der Schule als die Kinder in der Kontrollgruppe [77]. Dies kann sich wiederum negativ auf die Bildungsbiografie der Kinder bis hin zu höheren Schulabbruchquoten auswirken [78].

Auch sind finanzielle Folgen für die Familien nicht zu unterschätzen. Die Ergebnisse der Studie von Rasu et al. ließen erkennen, dass Eltern eines Kindes mit JIA deutlich häufiger über die Notwendigkeit einer Arbeitszeitreduzierung berichteten als die Eltern der Kinder ohne JIA [79]. Auch wenn Schuldienstleistungen im engeren Sinne nicht in der Fachbetreuung enthalten sind, sollten dennoch die Leistungserbringer des

Gesundheitswesens - neben politischen Entscheidungsträgern - prüfen, welchen Beitrag, gerade unter dem Aspekt einer ganzheitlichen Betreuung, sie leisten können, um die Teilnahme chronisch kranker Kinder insbesondere an Bildung und am gesellschaftlichen Leben insgesamt zu verbessern [80–82].

Zeit der Diagnosestellung

Bezüglich der Diagnosestellung betrug die mediane Dauer zur Feststellung dieser 2,9 Monate [1]. Rund die Hälfte der Patient:innen erhielt später als empfohlen eine Spezialbehandlung in der pädiatrischen Rheumatologie [1,83]. Hier müssen Maßnahmen ergriffen werden, die diese Zeit weiter verkürzen.

Der Zeitpunkt der Diagnosestellung ist gerade für Eltern eine Zeit von Ängsten und Bedenken hinsichtlich der Prognose der Krankheit und möglicher Auswirkungen auf das Kind sowie das gesamte Familiensystem. So wird die Zeit kurz vor, während und kurz nach der Diagnose als besonders kritisch bis traumatisch beschrieben [84]. In dieser Phase ist es von besonderer Bedeutung, dass das Behandlungsteam einen empathischen Umgang mit den Eltern und Patient:innen pflegt und adäquate, bedarfsgerechte Beratungsangebote unterbreitet [85]. Kommunikationsprobleme mit den Ärzt:innen wurden in vorliegender Studie nicht festgestellt. Die Familien gaben sogar an, mit dem Verhalten der Rheumatolog:innen sehr zufrieden zu sein.

5.3 Unerfüllte Bedarfe

Obwohl nicht-ärztliche Leistungen umfassend in Anspruch genommen wurden, gab fast jede dritte Familie einen unerfüllten Bedarf an. Letzteres wurde häufig mit sozialen, finanziellen und persönlichen Belastungen in Zusammenhang gebracht [1]. Dieses Ergebnis entspricht der Studie von Thyen et al. Hier wurde ebenfalls festgestellt, dass unerfüllte Bedarfe das Ausmaß der familiären Belastung vorhersagen [86]. Die Vermittlung von erkrankungsbezogenen Informationen wurden als häufigster unerfüllter Bedarf identifiziert. Dabei ist die Bedeutung dieser Leistung zur Verringerung der Krankheitslast bekannt und es wurden bereits Schulungsmaßnahmen für Eltern chronisch kranker Kinder empfohlen [87]. Da in diesem Bereich eine große Nachfrage besteht [1], sollten sowohl die vorhandenen Schulungsmöglichkeiten überarbeitet und an den Bedürfnissen der Nutzer:innen

ausgerichtet werden als auch andere Formen der Wissensvermittlung erarbeitet und evaluiert werden.

5.4 Gesundheitsbezogene kindliche Lebensqualität (HRQoL)

Es konnte ein Zusammenhang zwischen der HRQoL und der Inanspruchnahme einer multiprofessionellen Betreuung, unerfüllte Bedarfe und der Unzufriedenheit mit der Versorgungsqualität insgesamt festgestellt werden. Je niedriger die HRQoL, desto häufiger wurden eine multiprofessionelle Betreuung beansprucht und unerfüllte Bedarfe benannt [1]. Die HRQoL könnte im klinischen Alltag ein wichtiger Indikator sein, um Familien mit einem höheren Unterstützungsbedarf zu erkennen. Daher wäre die Implementierung eines regelmäßigen Screenings der HRQoL hilfreich, um entstehende Bedarfe und Belastungssituationen frühzeitig erkennen und diesen rechtzeitig mit Maßnahmen bzw. Unterstützungsangeboten begegnen zu können. Die Ergebnisse von der Childhood Arthritis and Rheumatology Research Alliance (CARRA) durchgeführten Umfrage unter Eltern von Kindern mit juveniler Myositis bestätigen dies. Hier wurden unter anderem die Kinder und deren Familien gebeten, 19 Aspekte einer qualitativ hochwertigen kinderrheumatologischen Versorgung nach ihrer Wichtigkeit mithilfe einer Likert-Skala zu bewerten. Am wichtigsten wurden die allgemeine Lebensqualität, rechtzeitige Diagnose, Zugang zur Rheumatologie und Wiederherstellung der körperlichen Funktionen eingeschätzt. Demnach wurde hier aus Sicht der Betroffenen die Lebensqualität als wichtigstes Qualitätsmaß identifiziert [88]. Dies unterstreicht nochmals die Bedeutung einer multiprofessionellen Versorgung, die sowohl den medizinischen als auch psychosozialen Bedürfnissen der Familien gerecht werden kann.

5.5 Stärken und Limitationen der Studie

Diese Querschnittsstudie weist Limitationen auf, die bei der Bewertung der Ergebnisse berücksichtigt werden müssen. Die Rekrutierung der Patient:innen fand in 11 großen pädiatrischen Rheumazentren statt. Es handelte sich hierbei um gut ausgestattete und hochspezialisierte Zentren. Dies hat zur Folge, dass Daten nicht auf

Bevölkerungsebene insgesamt bewertet werden konnten. Demnach wurde die Anzahl der unerfüllten Bedarfe und der Grad der Unzufriedenheit möglicherweise unterschätzt [1]. Zusätzlich besitzt der CHC-SUN, der die Zufriedenheit mit einer 5-stufigen Likert-Skala misst, keine neutrale mittlere Antwortkategorie. Die mittlere Antwortkategorie lautet „zufrieden“ und dies kann daher auch hier zu einer Antwortverzerrung zugunsten einer eher positiveren Bewertung führen. Zusätzlich wurden ausreichende Deutschkenntnisse benötigt, um den auf Deutsch erstellten Fragebogen zu verstehen und auszufüllen. Daher sind möglicherweise Kinder mit Migrationsgeschichte unterrepräsentiert.

Gleichzeitig handelt es sich bei ICON um eine prospektive multizentrische Kohortenstudie mit einer großen Stichprobengröße und schätzungsweise ein Drittel aller Patient:innen, bei denen in Deutschland während des Rekrutierungszeitraums eine JIA neu diagnostiziert wurde. Daher darf insgesamt eine repräsentative Analyse der pädiatrischen rheumatologischen Versorgungssituation angenommen werden [1].

5.6 Zusammenfassung

Aus Sicht der Eltern von Kindern mit JIA besteht Verbesserungsbedarf in der Versorgungsqualität insbesondere bei der Dauer für die Diagnosestellung, Bereithaltung von zusätzlichen Informationen über die Erkrankung und Unterstützung bei Krankheitsbeginn und einer ganzheitlichen Versorgung, die bedarfsgerecht das soziale Umfeld der Kinder berücksichtigt [1].

Inwiefern die Inanspruchnahme von multiprofessioneller Betreuung, unerfüllte Bedarfe und Unzufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung einen Einfluss auf das langfristige Outcome haben, muss in den noch folgenden Studien untersucht werden.

Bezüglich der Betreuungssituation chronisch kranker Kinder und Jugendlicher in der Schule besteht Handlungsbedarf, der insbesondere politisch gelöst werden muss. Dennoch können die Leistungserbringer des Gesundheitswesens zum politischen Diskurs beitragen, indem sie mit ihrer Expertise einen wichtigen Beitrag leisten.

6. Quellenverzeichnis

1. Heinrich-Rohr M, Mönkemöller K, Niewerth M, Sengler C, Liedmann I, Kallinich T, Horneff G, Windschall D, Haas J-P, Dressler F, Foeldvari I, Weller-Heinemann F, Hospach T, Kuemmerle-Deschner J, Föll D, Klotsche J, Minden K. Consumer perspective on healthcare services for juvenile idiopathic arthritis: results of a multicentre JIA inception cohort study. [Online vor dem Druck, 2021 Mar 30]. *Clin Exp Rheumatol*. 2021;
2. Constitution of the World Health Organization [Internet]. [zitiert 16. August 2021]. Verfügbar unter: <https://www.who.int/about/governance/constitution>
3. Hurrelmann K, Franzkowiak P. Gesundheit. Leitbegriffe der Gesundheitsförderung und Prävention: Glossar zu Konzepten. BZGA - Federal Centre for Health Education; 2015.
4. Egger JW. Das biopsychosoziale Krankheits- und Gesundheitsmodell. In: Egger JW, Herausgeber. Integrative Verhaltenstherapie und psychotherapeutische Medizin: Ein biopsychosoziales Modell [Internet]. Wiesbaden: Springer Fachmedien; 2015 [zitiert 23. August 2021]. S. 53–83. (Integrative Modelle in Psychotherapie, Supervision und Beratung). Verfügbar unter: https://doi.org/10.1007/978-3-658-06803-5_3.
5. Fietz C. Integrierte Versorgung – Lebensqualität und Patientenzufriedenheit im Rahmen der Integrativen Versorgung. *Gesundheitsökonomie Qual*. Juni 2019;24(3):116–116.
6. Latzitis N. Determinanten für Gesundheit und Krankheit in regionaler Perspektive: Analyse zum Einfluss von Sozioökonomie, Umwelt sowie medizinischer Versorgung auf den Gesundheitszustand der Bevölkerung Deutschlands. Saarbrücken: Südwestdeutscher Verlag für Hochschulschriften; 2011.
7. Lampert T, Hoebel J, Kroll LE. Soziale Unterschiede in der Mortalität und Lebenserwartung in Deutschland. Aktuelle Situation und Trends. 14. März 2019 [zitiert 2. September 2021]; Verfügbar unter: <https://edoc.rki.de/handle/176904/5909>
8. Rattay P, von der Lippe E. Association between Living with Children and the Health and Health Behavior of Women and Men. Are There Differences by Age? Results of the “German Health Update” (GEDA) Study. *Int J Environ Res Public Health*. Jänner 2020;17(9):3180.
9. Schumann M, Kajikhina K, Polizzi A, Sarma N, Hoebel J, Bug M, Bartig S, Lampert T, Santos-Hövenner C. Concepts for migration-sensitive health monitoring. 18. September 2019 [zitiert 2. September 2021]; Verfügbar unter: <https://edoc.rki.de/handle/176904/6110>
10. Robert Koch-Institut. Regionale Unterschiede in der Gesundheit – Entwicklung eines sozioökonomischen Deprivationsindex für Deutschland. 2018 [zitiert 2. September 2021]; Verfügbar unter: <https://edoc.rki.de/handle/176904/2648.2>

11. Störmann W. Gesundheits- und Umweltökonomik klipp & klar. Wiesbaden [Heidelberg]: Springer Gabler; 2019. 301 S. (WiWi klipp & klar). S. 91.
12. Größte Volkswirtschaften (BIP) weltweit [Internet]. Statista. [zitiert 17. August 2021]. Verfügbar unter: <https://de.statista.com/statistik/daten/studie/157841/umfrage/ranking-der-20-laender-mit-dem-groessten-bruttoinlandsprodukt/>
13. Spannagel D, Molitor K. Einkommen immer ungleicher verteilt. WSI-Verteilungsbericht 2019. WSI-Mitteilungen. 2019;72(6):440–50.
14. Mielck A, Vogelmann M, Leidl R. Health-related quality of life and socioeconomic status: inequalities among adults with a chronic disease. Health Qual Life Outcomes. 2014;12:58.
15. Lampert T, Kroll LE. Armut und Gesundheit [Internet]. Robert Koch-Institut; 2010 Dez [zitiert 23. August 2021]. Verfügbar unter: <https://edoc.rki.de/handle/176904/3090>
16. Heinrich DJ, Mielck A, Schäfer I, Mey W. Social inequality and environmentally-related diseases in Germany: Review of empirical results. Soz- Präventivmedizin. Mai 2000;45(3):106–18.
17. Scheidt-Nave C. Chronische Erkrankungen – Epidemiologische Entwicklung und die Bedeutung für die Öffentliche Gesundheit. Public Health Forum. 1. April 2010;18(1):2–4.
18. Amtliche Veröffentlichungen – Bundesanzeiger [Internet]. [zitiert 19. August 2021]. Verfügbar unter: <https://www.bundesanzeiger.de/pub/de/amtliche-veroeffentlichung?1>
19. Versichertenbefragung der Kassenärztlichen Bundesvereinigung 2019 [Internet]. [zitiert 17.09.2021]. Verfügbar unter: https://www.kbv.de/media/sp/Berichtband_Ergebnisse_der_Versichertenbefragung_2019.pdf
20. Lange C, Robert Koch-Institut, Herausgeber. Daten und Fakten: Ergebnisse der Studie „Gesundheit in Deutschland aktuell 2010“. Berlin: Robert-Koch-Inst; 2012. (Beiträge zur Gesundheitsberichterstattung des Bundes).
21. Robert Koch-Institut. Kinder und Jugendliche mit besonderem Versorgungsbedarf im Follow-up: Ergebnisse der KiGGS-Studie 2003 – 2012. 2017 [zitiert 23. August 2021]; Verfügbar unter: <http://edoc.rki.de/docviews/abstract.php?lang=ger&id=5434>
22. Havighurst RJ. Developmental tasks and education. 3. ed., [newly rev.], 3. print. New York, NY: McKay; 1974. 32 ff.
23. Trautmann M, Herausgeber. Entwicklungsaufgaben im Bildungsgang. 1. Aufl. Wiesbaden: VS, Verl. für Sozialwiss; 2004. (Studien zur Bildungsgangforschung). S. 72 ff.

24. Raile K, Boss K, Braune K, Heinrich-Rohr M. Versorgung von Kindern und Jugendlichen mit Typ-1-Diabetes: Lösungen für technische und psychosoziale Herausforderungen. Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz. 2020.
25. Gesetz zu dem Übereinkommen vom 20. Oktober 2005 über den Schutz und die Förderung der Vielfalt kultureller Ausdrucksformen. Bundesgesetzblatt Teil II. 6. März 2007;(6):234.
26. Lange K, Danne T, Kordonouri O, Berndt V, Müller B, Schwarz H-P, Hesse V, Busse-Widmann P. [Diabetes in childhood: everyday burdens and professional consequences for parents]. Dtsch Med Wochenschr 1946. 14. Mai 2004;129(20):1130–4.
27. Heinrich M, Boß K, Wendenburg J, Hilgard D, Sengbusch S von, Kapellen TM. Unzureichende Versorgung gefährdet Inklusion von Kindern mit Diabetes mellitus Typ 1. Diabetol Stoffwechs. Oktober 2019;14(05):380–7.
28. Lazarus RS, Folkman S. Stress, appraisal, and coping. 11. [print.]. New York: Springer; 2020.
29. Haring R, Herausgeber. Gesundheitswissenschaften [Internet]. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2019 [zitiert 16. August 2021]. (Springer Reference Pflege – Therapie – Gesundheit). Verfügbar unter: <http://link.springer.com/10.1007/978-3-662-58314-2>
30. Taraks S. Kinder zwischen Schule, chronischer Erkrankung/Behinderung, Sport und Inklusion. In: Das Gesundheitswesen [Internet]. Georg Thieme Verlag KG; 2018 [zitiert 1. September 2021]. S. V38. Verfügbar unter: <http://www.thieme-connect.de/DOI/DOI?10.1055/s-0038-1639218>
31. Serlachius A, Badawy SM, Thabrew H. Psychosocial Challenges and Opportunities for Youth With Chronic Health Conditions During the COVID-19 Pandemic. JMIR Pediatr Parent. 12. Oktober 2020;3(2):e23057.
32. Grandy S, Felder-Puig R. Psychosoziale Versorgung durch schulische Unterstützungssysteme: Versorgungslücken, Redundanzen und kooperationshemmende Rahmenbedingungen in Österreich. Prävent Gesundheitsförderung. Mai 2016;11(2):133–9.
33. Kleber N, Ebner A, Kerschhuber A, Riedler J. Jugendmedizin – warum? Pädiatr Pädologie. Juni 2015;50(3):98–102.
34. Schneider M, Haupt M. Krankheitsbewältigung bei systemischem Lupus erythematoses. Z Für Rheumatol. September 2015;74(7):591–6.
35. Petty RE, Southwood TR, Manners P, Baum J, Glass DN, Goldenberg J, He X, Maldonado-Cocco J, Orozco-Alcala J, Prieur A-M, Suarez-Almazor ME, Woo P. International League of Associations for Rheumatology. International League of Associations for Rheumatology classification of juvenile idiopathic arthritis: second revision, Edmonton, 2001. J Rheumatol. Februar 2004;31(2):390–2.

36. Minden K. Classification and epidemiology of juvenile idiopathic arthritis. In: Hochberg MC, Silman AJ, Smolen JS, Weinblatt ME, Weisman MH, Herausgeber. *Rheumatology (Sixth Edition)* [Internet]. Philadelphia: Mosby; 2015 [zitiert 24. August 2021]. S. 826–32. Verfügbar unter: <https://www.sciencedirect.com/science/article/pii/B9780323091381001005>
37. Ringold S, Wallace CA, Rivara FP. Health-related quality of life, physical function, fatigue, and disease activity in children with established polyarticular juvenile idiopathic arthritis. *J Rheumatol*. 1. Juni 2009;36(6):1330–6.
38. Krause ML, Zamora-Legoff JA, Crowson CS, Muskardin TW, Mason T, Matteson EL. Population-based study of outcomes of patients with juvenile idiopathic arthritis (JIA) compared to non-JIA subjects. *Semin Arthritis Rheum*. Februar 2017;46(4):439–43.
39. Rheumatology (NoSPeR) the NSG of P, Glerup M, Rypdal V, Arnstad ED, Ekelund M, Peltoniemi S, Aalto K, Rygg M, Toftedal P, Nielsen S, Fasth A, Berntson L, Nordal E, Herlin T. Long-term outcomes in juvenile idiopathic arthritis: 18 years of follow-up in the population-based Nordic Juvenile Idiopathic Arthritis (JIA) cohort. *Arthritis Care Res*. April 2020;72(4):507–16.
40. Berthold E, Månsson B, Kahn R. Outcome in juvenile idiopathic arthritis: a population-based study from Sweden. *Arthritis Res Ther*. 28. Oktober 2019;21(1):218.
41. McCann LJ. JUVENILE IDIOPATHIC ARTHRITIS. *Arch Dis Child - Educ Pract*. 1. August 2006;91(2):ep29–36.
42. Tollisen A, Selvaag AM, Aulie HA, Lilleby V, Aasland A, Lerdal A, Flatø B. Physical Functioning, Pain, and Health-Related Quality of Life in Adults With Juvenile Idiopathic Arthritis: A Longitudinal 30-Year Followup Study. *Arthritis Care Res*. Mai 2018;70(5):741–9.
43. Cellucci T, Guzman J, Petty RE, Batthish M, Benseler SM, Ellsworth JE, Houghton KM, LeBLANC CMA, Huber AM, Luca N, Schmeling H, Shiff NJ, Soon GS, Tse SML. Management of Juvenile Idiopathic Arthritis 2015: A Position Statement from the Pediatric Committee of the Canadian Rheumatology Association. *J Rheumatol*. Oktober 2016;43(10):1773–6.
44. Davies K, Cleary G, Foster H, Hutchinson E, Baidam E, British Society of Paediatric and Adolescent Rheumatology. BSPAR Standards of Care for children and young people with juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatol Oxf Engl*. Juli 2010;49(7):1406–8.
45. McErlane F, Foster HE, Armit G, Bailey K, Cobb J, Davidson JE, Douglas S, Fell A, Friswell M, Pilkington C, Strike H, Smith N, Thomson W, Cleary G. Development of a national audit tool for juvenile idiopathic arthritis: a BSPAR project funded by the Health Care Quality Improvement Partnership. *Rheumatology*. 1. Jänner 2018;57(1):140–51.
46. Barber CEH, Twilt M, Pham T, Currie GR, Benseler S, Yeung RSM, Batthish M, Blanchette N, Guzman J, Lang B, LeBlanc C, Levy DM, O'Brien C, Schmeling H,

- Soon G, Spiegel L, Whitney K, Marshall DA. A Canadian evaluation framework for quality improvement in childhood arthritis: key performance indicators of the process of care. *Arthritis Res Ther*. Dezember 2020;22(1):53.
47. Lindström C, Aman J, Norberg AL. Increased prevalence of burnout symptoms in parents of chronically ill children. *Acta Paediatr Oslo Nor* 1992. März 2010;99(3):427–32.
 48. Butler A, Van Lieshout RJ, Lipman EL, MacMillan HL, Gonzalez A, Gorter JW, Georgiades K, Speechley KN, Boyle MH, Ferro MA. Mental disorder in children with physical conditions: a pilot study. *BMJ Open*. 03 2018;8(1):e019011.
 49. Otto C, Barthel D, Klasen F, Nolte S, Rose M, Meyrose A-K, Klein M, Thyen U, Ravens-Sieberer U. Predictors of self-reported health-related quality of life according to the EQ-5D-Y in chronically ill children and adolescents with asthma, diabetes, and juvenile arthritis: longitudinal results. *Qual Life Res Int J Qual Life Asp Treat Care Rehabil*. 30. November 2017.
 50. Angelis A, Kanavos P, López-Bastida J, Linertová R, Serrano-Aguilar P, BURQOL-RD Research Network. Socioeconomic costs and health-related quality of life in juvenile idiopathic arthritis: a cost-of-illness study in the United Kingdom. *BMC Musculoskelet Disord*. 02 2016;17:321.
 51. Bompoti E, Niakas D, Nakou I, Siamopoulou-Mavridou A, Tzoufi MS. Comparative study of the health-related quality of life of children with epilepsy and their parents. *Epilepsy Behav EB*. Dezember 2014;41:11–7.
 52. Cousino MK, Hazen RA. Parenting stress among caregivers of children with chronic illness: a systematic review. *J Pediatr Psychol*. September 2013;38(8):809–28.
 53. Lach LM, Kohen DE, Garner RE, Brehaut JC, Miller AR, Klassen AF, Rosenbaum PL. The health and psychosocial functioning of caregivers of children with neurodevelopmental disorders. *Disabil Rehabil*. 2009;31(9):741–52.
 54. Vonneilich N, Lüdecke D, Kofahl C. The impact of care on family and health-related quality of life of parents with chronically ill and disabled children. *Disabil Rehabil*. 29. Juni 2015;1–7.
 55. Seid M, Varni JW, Kurtin PS. Measuring quality of care for vulnerable children: challenges and conceptualization of a pediatric outcome measure of quality. *Am J Med Qual Off J Am Coll Med Qual*. August 2000;15(4):182–8.
 56. Crossing the Quality Chasm: A New Health System for the 21st Century [Internet]. Washington, D.C.: National Academies Press; 2001 [zitiert 24. August 2021]. Verfügbar unter: <http://www.nap.edu/catalog/10027>
 57. Navaratnam V, Forrester DL, Eg KP, Chang AB. Paediatric and adult bronchiectasis: Monitoring, cross-infection, role of multidisciplinary teams and self-management plans. *Respirol Carlton Vic*. Februar 2019;24(2):115–26.

58. Narula G, Prasad M, Jatia S, Subramanian PG, Patkar N, Tembhare P, Shetty D, Khanna N, Laskar S, Shet T, Epari S, Kembhavi S, Shah S, Qureshi S, Gujral S, Banavali SD. Clinicoepidemiological profiles, clinical practices, and the impact of holistic care interventions on outcomes of pediatric hematolymphoid malignancies - A 7-year audit of the pediatric hematolymphoid disease management group at Tata Memorial Hospital. *Indian J Cancer*. Dezember 2017;54(4):609–15.
59. Piran P, Khademi Z, Tayari N, Mansouri N. Caregiving burden of children with chronic diseases. *Electron Physician*. September 2017;9(9):5380–7.
60. Dueckers G, Guellac N, Arbogast M, Dannecker G, Foeldvari I, Frosch M, Ganser G, Heiligenhaus A, Horneff G, Illhardt A, Krauspe R, Markus B, Michels H, Schneider M, Singendonk W, Sitter H, Spamer M, Wagner N, Niehues T, German Society of Paediatric Rheumatology. Evidence and consensus based treatment guidelines 2010 for juvenile idiopathic arthritis by the German Society of Paediatric Rheumatology. *Klin Padiatr*. November 2011;223(6):386–94.
61. Wiedebusch S, Muthny FA. Parents of chronically ill children. *Monatsschr Kinderheilkd*. 2009;157(9):903–10.
62. Ullrich G, Dressler F, Glüer I, Legler D, Leunig E, Meyke A, Thon A. The pediatric rheumatology outpatient clinic — a multidisciplinary approach. *Monatsschr Kinderheilkd*. 1996;144(9):872–7.
63. Tong A, Jones J, Speerin R, Filocamo K, Chaitow J, Singh-Grewal D. Consumer perspectives on pediatric rheumatology care and service delivery: a qualitative study. *J Clin Rheumatol Pract Rep Rheum Musculoskelet Dis*. August 2013;19(5):234–40.
64. Sengler C, Klotsche J, Niewerth M, Liedmann I, Föll D, Heiligenhaus A, Ganser G, Horneff G, Haas J-P, Minden K. The majority of newly diagnosed patients with juvenile idiopathic arthritis reach an inactive disease state within the first year of specialised care: data from a German inception cohort. *RMD Open* [Internet]. 8. Dezember 2015 [zitiert 19. Mai 2020];1(1). Verfügbar unter: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4680591/>
65. Foeldvari I, Ruperto N, Dressler F, Häfner R, Küster RM, Michels H, Minden K, Schauer-Petrowskaja C, Bullinger M, Landgraf JM, Huppertz HI, Paediatric Rheumatology International Trials Organisation. The German version of the Childhood Health Assessment Questionnaire (CHAQ) and the Child Health Questionnaire (CHQ). *Clin Exp Rheumatol*. August 2001;19(4 Suppl 23):S71-75.
66. Niewerth M, Minden K, Biedermann T, Schöntube M, Zink A. Pediatric Quality of Life Inventory: Evaluierung eines deutschen Messinstrumentes zur Beurteilung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität bei Kindern und Jugendlichen mit juveniler idiopathischer Arthritis. *Aktuelle Rheumatol*. Oktober 2003;28(05):F_7.
67. Consolaro A, Giancane G, Schiappapietra B, Davì S, Calandra S, Lanni S, Ravelli A. Clinical outcome measures in juvenile idiopathic arthritis. *Pediatr Rheumatol Online J*. 18. April 2016;14(1):23.

68. Ravens-Sieberer U, Morfeld M, Stein REK, Jessop DJ, Bullinger M, Thyen U. Der Familien-Belastungs-Fragebogen (FaBel-Fragebogen). *PPmP - Psychother - Psychosom - Med Psychol.* September 2001;51(9/10):384–93.
69. Schmidt S, Thyen U, Chaplin J, Mueller-Godeffroy E, European DISABKIDS Group. Cross-cultural development of a child health care questionnaire on satisfaction, utilization, and needs. *Ambul Pediatr Off J Ambul Pediatr Assoc.* Oktober 2007;7(5):374–82.
70. Lampert T, Müters S, Stolzenberg H, Kroll LE, KiGGS Study Group. [Measurement of socioeconomic status in the KiGGS study: first follow-up (KiGGS Wave 1)]. *Bundesgesundheitsblatt Gesundheitsforschung Gesundheitsschutz.* Juli 2014;57(7):762–70.
71. van Dijkhuizen EHP, Egert T, Egert Y, Costello W, Schoemaker C, Fernhout M, Kepic M, Martini A, Scala S, Rotstein-Grein I, Vastert SJ, Wulffraat NM. Patient's experiences with the care for juvenile idiopathic arthritis across Europe. *Pediatr Rheumatol Online J.* 8. Februar 2018;16(1):10.
72. Mönkemöller K, Mirza J, Weiß M. Wandel in der Versorgung chronisch kranker Kinder und Jugendlicher. *Monatsschr Kinderheilkd.* 1. August 2017;165(8):672–80.
73. Ramelet A-S, Fonjallaz B, Rio L, Zoni S, Ballabeni P, Rapin J, Gueniat C, Hofer M. Impact of a nurse led telephone intervention on satisfaction and health outcomes of children with inflammatory rheumatic diseases and their families: a crossover randomized clinical trial. *BMC Pediatr.* Dezember 2017;17(1):168.
74. Javalkar K, Rak E, Phillips A, Haberman C, Ferris M, Van Tilburg M. Predictors of Caregiver Burden among Mothers of Children with Chronic Conditions. *Child Basel Switz.* 16. Mai 2017;4(5).
75. Smith LA, Romero D, Wood PR, Wampler NS, Chavkin W, Wise PH. Employment barriers among welfare recipients and applicants with chronically ill children. *Am J Public Health.* September 2002;92(9):1453–7.
76. Nakamura M, Kanematsu Y, Yokota M, Takeda J, Nakamura N, Maru M, Furuya K, Noguchi M, Uchida M, Sugimoto Y. Social support of chronically-ill children and healthy children. *Nihon Kango Kagakkaishi.* Februar 1997;17(1):40–7.
77. Bouaddi I, Rostom S, El Badri D, Hassani A, Chkirate B, Amine B, Hajjaj-Hassouni N. Impact of juvenile idiopathic arthritis on schooling. *BMC Pediatr.* 7. Jänner 2013;13:2.
78. Suris J-C, Michaud P-A, Viner R. The adolescent with a chronic condition. Part I: developmental issues. *Arch Dis Child.* 1. Oktober 2004;89(10):938–42.
79. Rasu RS, Cline SK, Shaw JW, Hayes O, Agbor Bawa W, Cifaldi MA. Impact of JIA on parents' work absences. *Rheumatol Oxf Engl.* Juli 2015;54(7):1177–85.
80. Hurrelmann K, Razum O. *Handbuch Gesundheitswissenschaften.* 6., durchgesehene Auflage. Weinheim: Beltz Juventa; 2016.

81. Wydler H. Salutogenese und Kohärenzgefühl: Grundlagen, Empirie und Praxis eines gesundheitswissenschaftlichen Konzepts. 4. Aufl. Weinheim [u.a.]: Juventa-Verl; 2010.
82. Munro J, Murray K, Boros C, Chaitow J, Allen RC, Akikusa J, Adib N, Piper SE, Singh-Grewal D, Australian Paediatric Rheumatology Group. Australian Paediatric Rheumatology Group standards of care for the management of juvenile idiopathic arthritis. *J Paediatr Child Health*. September 2014;50(9):663–6.
83. Oommen PT, Hinze C, Holzinger D, Hospach A, Minden K, Schütz C. Therapie der juvenilen idiopathischen Arthritis (JIA): Aktualisierung der interdisziplinären AWMF-S2k-Leitlinie „Therapie der juvenilen idiopathischen Arthritis“. *Arthritis Rheuma*. August 2020;40(04):260–9.
84. Prakke HM. Maternal Caregivers' Concerns, Knowledge and Needs in Caring for Their Chronically Ill Children: An Interpretive Phenomenological Study. San Francisco: University of California; 2004.
85. Modica R, Graham Lomax K, Batzel P, Shapardanis L, Compton Katzer K, Elder M. The family journey-to-diagnosis with systemic juvenile idiopathic arthritis: a cross-sectional study of the changing social media presence. *Open Access Rheumatol Res Rev*. Mai 2016;61.
86. Thyen U, Sperner J, Morfeld M, Meyer C, Ravens-Sieberer U. Unmet health care needs and impact on families with children with disabilities in Germany. *Ambul Pediatr Off J Ambul Pediatr Assoc*. April 2003;3(2):74–81.
87. Roper SO, Allred DW, Mandleco B, Freeborn D, Dyches T. Caregiver burden and sibling relationships in families raising children with disabilities and typically developing children. *Fam Syst Health J Collab Fam Healthc*. Juni 2014;32(2):241–6.
88. the CARRA Juvenile Dermatomyositis Quality Measures Workgroup, Tory HO, Carrasco R, Griffin T, Huber AM, Kahn P, Robinson AB, Zurakowski D, Kim S. Comparing the importance of quality measurement themes in juvenile idiopathic inflammatory myositis between patients and families and healthcare professionals. *Pediatr Rheumatol*. Dezember 2018;16(1):28.

Eidesstattliche Versicherung

„Ich, Michaela Heinrich-Rohr, versichere an Eides statt durch meine eigenhändige Unterschrift, dass ich die vorgelegte Dissertation mit dem Thema: „Psychosoziale Kontextfaktoren bei chronischen Erkrankungen im Kindes- und Jugendalter am Beispiel der juvenilen idiopathischen Arthritis/ Psychosocial contextual factors in chronic diseases in childhood and adolescence using the example of juvenile idiopathic arthritis

“ selbstständig und ohne nicht offengelegte Hilfe Dritter verfasst und keine anderen als die angegebenen Quellen und Hilfsmittel genutzt habe.

Alle Stellen, die wörtlich oder dem Sinne nach auf Publikationen oder Vorträgen anderer Autor:innen beruhen, sind als solche in korrekter Zitierung kenntlich gemacht.

Die Abschnitte zu Methodik (insbesondere statistische Aufarbeitung) und Resultaten (insbesondere Abbildungen, Graphiken und Tabellen) werden von mir verantwortet.

Ich versichere ferner, dass ich die in Zusammenarbeit mit anderen Personen generierten Daten, Datenauswertungen und Schlussfolgerungen korrekt gekennzeichnet und meinen eigenen Beitrag sowie die Beiträge anderer Personen korrekt kenntlich gemacht habe (siehe Anteilserklärung). Texte oder Textteile, die gemeinsam mit anderen erstellt oder verwendet wurden, habe ich korrekt kenntlich gemacht.

Meine Anteile an etwaigen Publikationen zu dieser Dissertation entsprechen denen, die in der untenstehenden gemeinsamen Erklärung mit der Erstbetreuerin, angegeben sind. Für sämtliche im Rahmen der Dissertation entstandenen Publikationen wurden die Richtlinien des ICMJE (International Committee of Medical Journal Editors; www.icmje.org) zur Autor:innenschaft eingehalten. Ich erkläre ferner, dass ich mich zur Einhaltung der Satzung der Charité – Universitätsmedizin Berlin zur Sicherung Guter Wissenschaftlicher Praxis verpflichte.

Weiterhin versichere ich, dass ich diese Dissertation weder in gleicher noch in ähnlicher Form bereits an einer anderen Fakultät eingereicht habe.

Die Bedeutung dieser eidesstattlichen Versicherung und die strafrechtlichen Folgen einer unwahren eidesstattlichen Versicherung (§§156, 161 des Strafgesetzbuches) sind mir bekannt und bewusst.“

Datum

Unterschrift

Anteilserklärung

Michaela Heinrich-Rohr hatte folgenden Anteil an folgender Publikation:

Publikation 1: Heinrich-Rohr M, Mönkemöller K, Niewerth M, Sengler C, Liedmann I, Kallinich T, Horneff G, Windschall D, Haas J-P, Dressler F, Foeldvari I, Weller-Heinemann F, Hospach T, Kuemmerle-Deschner J, Föll D, Klotsche J, Minden K. Consumer perspective on healthcare services for juvenile idiopathic arthritis: results of a multicentre JIA inception cohort study. [Online vor dem Druck, 2021 Mar 30]. *Clin Exp Rheumatol*. 2021;

Beitrag im Einzelnen:

Michaela Heinrich-Rohr arbeitete sich selbständig in die relevante Literatur ein. Die Fragestellung zur oben genannten Studie entstand in Zusammenarbeit mit dem Deutschen Rheuma-Forschungszentrum Berlin (DRFZ), Programmbereich Epidemiologie/ Kinderrheumatologie unter Leitung von Frau Prof. Kirsten Minden. Die notwendigen Daten zur Beantwortung der Forschungsfragen lagen zu Beginn der Dissertation bereits vor. Nach Erhalt des für die Forschungsfrage relevanten Rohdatensatzes, führte Frau Heinrich-Rohr eigenständig die Datenbereinigung und anschließend die statistische Auswertung durch. Alle Abbildungen und Tabellen sind von Frau Heinrich-Rohr eigenständig erstellt worden. Nach Interpretation der Ergebnisse, folgte die Erstellung und Überarbeitung des Manuskripts.

Unterschrift, Datum und Stempel des betreuenden Hochschullehrers

Unterschrift der Doktorandin

Auszug aus der Journal Summary List

Journal Data Filtered By: **Selected JCR Year: 2019** Selected Editions: SCIE,SSCI
 Selected Categories: **"RHEUMATOLOGY"** Selected Category Scheme: WoS
Gesamtanzahl: 32 Journale

Rank	Full Journal Title	Total Cites	Journal Impact Factor	Eigenfactor Score
1	Nature Reviews Rheumatology	8,803	16.625	0.020790
2	ANNALS OF THE RHEUMATIC DISEASES	45,865	16.102	0.072930
3	Arthritis & Rheumatology	12,256	9.586	0.048650
4	RHEUMATOLOGY	20,501	5.606	0.028810
5	Therapeutic Advances in Musculoskeletal Disease	947	5.043	0.001510
6	OSTEOARTHRITIS AND CARTILAGE	17,124	4.793	0.024170
7	SEMINARS IN ARTHRITIS AND RHEUMATISM	6,553	4.751	0.011390
8	ARTHRITIS RESEARCH & THERAPY	17,130	4.103	0.025210
9	ARTHRITIS CARE & RESEARCH	16,426	4.056	0.020450
10	CURRENT OPINION IN RHEUMATOLOGY	4,791	4.006	0.007060
11	Current Rheumatology Reports	3,018	3.873	0.005580
12	JOINT BONE SPINE	3,874	3.741	0.005130
13	Rheumatology and Therapy	453	3.615	0.001390
14	JOURNAL OF RHEUMATOLOGY	21,996	3.350	0.019460
15	CLINICAL AND EXPERIMENTAL RHEUMATOLOGY	9,007	3.319	0.011610
16	RHEUMATIC DISEASE CLINICS OF NORTH AMERICA	2,307	3.244	0.003300
17	SCANDINAVIAN JOURNAL OF RHEUMATOLOGY	3,269	3.025	0.003550
18	BEST PRACTICE & RESEARCH IN CLINICAL RHEUMATOLOGY	3,574	2.727	0.005050
19	Pediatric Rheumatology	1,385	2.595	0.003840

Rank	Full Journal Title	Total Cites	Journal Impact Factor	Eigenfactor Score
20	CLINICAL RHEUMATOLOGY	8,821	2.394	0.013660
21	JCR-JOURNAL OF CLINICAL RHEUMATOLOGY	1,793	2.360	0.002400
22	LUPUS	6,952	2.251	0.009130
23	Modern Rheumatology	3,186	2.113	0.005090
24	RHEUMATOLOGY INTERNATIONAL	6,685	1.984	0.008570
25	International Journal of Rheumatic Diseases	2,703	1.980	0.005950
26	BMC MUSCULOSKELETAL DISORDERS	10,925	1.879	0.019930
27	Revista Brasileira De Reumatologia	937	1.810	0.001360
28	Acta Reumatologica Portuguesa	460	1.183	0.000700
29	ZEITSCHRIFT FUR RHEUMATOLOGIE	994	1.166	0.000980
30	Advances in Rheumatology	50	0.854	0.000080
31	Archives of Rheumatology	164	0.731	0.000460
32	AKTUELLE RHEUMATOLOGIE	88	0.316	0.000060

Copyright © 2020 Clarivate Analytics

Druckexemplar der ausgewählten Publikation

Consumer perspective on healthcare services for juvenile idiopathic arthritis: results of a multicentre JIA inception cohort study

M. Heinrich-Rohr^{1,2}, K. Moenkemoeller³, M. Niewerth², C. Sengler², I. Liedmann², T. Kallinich^{2,4}, G. Horneff^{5,6}, D. Windschall⁷, J.-P. Haas⁸, F. Dressler⁹, I. Foeldvari¹⁰, F. Weller-Heinemann¹¹, T. Hospach¹², J. Kuemmerle-Deschner¹³, D. Foell¹⁴, J. Klotsche², K. Minden^{2,4}

¹Center for chronically sick children Charité - Universitätsmedizin Berlin; ²German Rheumatism Research Centre Berlin, a Leibniz Institute, Berlin; ³Kinderkrankenhaus Amsterdamer Straße, Kliniken der Stadt Köln, Köln, Germany; ⁴Department of Paediatric Pulmonology, Immunology, and Intensive Care Medicine, Charité - Universitätsmedizin Berlin; ⁵Department of Paediatrics, Centre for Paediatric Rheumatology, Asklepios Clinic Sankt Augustin, Sankt Augustin; ⁶Department of Paediatric and Adolescents Medicine, University Hospital of Cologne, Cologne; ⁷Clinic of Paediatric Rheumatology, St. Josef-Stift Hospital, Sendenhorst; ⁸German Centre for Paediatric and Adolescent Rheumatology, Garmisch-Partenkirchen; ⁹Department of Paediatric Pneumology, Allergology and Neonatology, Children's Hospital, Medical School, Hanover; ¹⁰Hamburg Centre for Paediatric and Adolescent Rheumatology, Schön Klinik Hamburg Eilbek, Hamburg; ¹¹Prof.-Hess-Kinderklinik, Bremen; ¹²Olgahospital Kinderklinik, Stuttgart; ¹³Klinik für Kinder- und Jugendmedizin, Universitätsklinikum Tübingen; ¹⁴Department of Paediatric Rheumatology and Immunology, University of Münster, Germany.

Abstract

Objective

To evaluate healthcare services for patients with juvenile idiopathic arthritis (JIA) from the parent-proxy perspective and to identify factors associated with perceived deficits in care.

Methods

Patients with JIA from 11 paediatric rheumatology units were enrolled in an inception cohort within the first 12 months after diagnosis. Healthcare services were assessed using The Child Healthcare Questionnaire on satisfaction, utilisation and needs. Factors associated with deficits in care were identified by logistic regression analysis.

Results

Data from parents of 835 JIA-patients were included in the analysis. At the assessment (4.7 months after diagnosis), 85% of the patients received drug treatment, and 50% had received multi-professional care. The most frequently used services were physiotherapy (84%), occupational therapy (23%), and telephone counselling (17%). Almost one-third of families reported that they had not received the services that they needed, with health education being the most frequently reported need. Most parents (93%) were satisfied with the overall healthcare provided for their children, especially regarding doctors' behaviour. However, approximately 1 in 3 consumers were dissatisfied with the time to JIA diagnosis and the school services. The lower the child's quality of life, the higher the chance was that the child and the family received multi-professional care, perceived unmet needs, and were dissatisfied with care.

Conclusion

According to parents' experience and satisfaction with their child's care, performance at the system level can be further improved by diagnosing JIA earlier, providing additional information at disease onset, and ensuring that the child's social environment is taken into account.

Key words

juvenile idiopathic arthritis, quality of life, quality of health care, health services needs

Michaela Heinrich-Rohr, MA
 Kirsten Moenkemoeller, MD
 Martina Niewerth, MPH
 Claudia Sengler, MD
 Ina Liedmann
 Tilmann Kallinich, MD
 Gerd Horneff, MD
 Daniel Windschall, MD
 Johannes-Peter Haas, MD
 Frank Dressler, MD
 Ivan Foeldvari, MD
 Frank Weller-Heineman, MD
 Toni Hospach, MD
 Jasmin Kuemmerle-Deschner, MD
 Dirk Foell, MD
 Jens Klotsche, PhD*
 Kirsten Minden, MD*

*These authors contributed equally.

Please address correspondence to:
 Kirsten Minden,
 Charité - Universitätsmedizin Berlin,
 Chariteplatz 1,
 10117 Berlin, Germany.
 E-mail: minden@dfz.de

Received on December 11, 2020; accepted
 in revised form on February 17, 2021.

© Copyright CLINICAL AND
 EXPERIMENTAL RHEUMATOLOGY 2021.

Funding: the ICON study is funded by
 a research grant of the Federal ministry
 of education and research (BMBF, FKZ
 01ER0812, FKZ 01ER1504A-C).
 K. Minden was funded by the Deutsche
 Rheumastiftung from 2015 to 2020.

Competing interests:

G. Horneff received research support
 from MSD, Novartis, Pfizer and Roche,
 and speaker fees from Lilly, Novartis,
 Pfizer and Sobi;
 F. Dressler received honoraria from
 Abbvie, Novartis and Pfizer;
 J. Kuemmerle-Deschner received
 honoraria and research funding from
 Novartis and Sobi;
 D. Foell received honoraria and research
 funding from Novartis, Pfizer and Sobi;
 K. Minden received honoraria from Abbvie,
 GSK, Medac, Novartis, Pfizer, and Sanofi.
 The other authors have declared
 no competing interests.

Introduction

Juvenile idiopathic arthritis (JIA) represents a group of chronic diseases characterised by joint inflammation of unknown aetiology with disease onset before the age of 16 years (1). All forms of JIA are associated with a risk of accumulating joint and extra-articular damage, functional disability and a reduced health-related quality of life (HRQoL) (2-5). A timely diagnosis and adequate treatment are key to achieving the best possible outcomes. Consequences of inadequate treatment include pain, disability due to joint deformities or damage, growth abnormalities, and psychological impacts (6, 7). Therefore, timely access to holistic multidisciplinary care is a key performance indicator of paediatric rheumatology care (8-11). However, wide variability in practice and care exists (12). Practice variation concerns service provision and medical treatment, including DMARD start and step-up patterns (13-15). There has been increasing interest in measuring processes and outcomes of care to reduce unwarranted variability and ensure high-quality healthcare, which is defined as adequate care that is tailored to the needs and preferences of the patient or parents and increases the likelihood of desired health outcomes (16, 17).

In Germany, an inception cohort study of patients newly diagnosed with JIA (ICON) was initiated to study the outcomes of JIA under current therapeutic conditions (18). In the ICON study, the perspective of consumers on healthcare was assessed from the beginning of the study to obtain insights into their experience with and perceived quality of care. The aims of this analysis were i) to determine which healthcare services were used by the families of children and adolescents with JIA during the first months of rheumatology care, ii) to determine the unmet needs and level of dissatisfaction with care, and iii) to identify factors associated with multi-professional care, unmet needs and dissatisfaction with care.

Patients and methods

Study cohort

ICON is an ongoing multicentre prospective observational cohort study.

Patients diagnosed with JIA within the last 12 months according to the International League of Associations for Rheumatology criteria were included in ICON from 2010 to 2014 and have been followed since then (1). More details on the ICON cohort were described by Sengler (18). Informed consent was obtained from the parents and their children (≥8 years). The study was approved by the ethics committee of the Charité-Universitätsmedizin Berlin and conducted in accordance with the Declaration of Helsinki.

Participants

In total, 954 patients confirmed to have JIA were enrolled in ICON and assessed every 3 months in the first year and every 6 months thereafter. Patients for whom physician- and parent-reported data at the three-month follow-up were available were considered in this analysis.

Assessments

Patients' and disease characteristics. Demographic and clinical data were collected from the parents of the JIA patients and the paediatric rheumatologists, respectively. The paediatric rheumatologists recorded each patient's treatments and disease state, for example, the number of active joints (range 0-81) and level of disease activity (physician's global assessment) on a 21-point numeric rating scale (NRS; 0-10). The parents of the JIA patients assessed their child's overall well-being (parent's global assessment) by a 21-point NRS, functional ability by the Childhood Health Assessment Questionnaire (CHAQ) (19) and HRQoL by the Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 (PedsQL) (20). JIA disease activity was evaluated by the clinical Juvenile Arthritis Disease Activity Score (cJADAS-10) (21).

Family burden. In addition, parents completed the German version of the Impact on Family Scale (22). The Family Burden Questionnaire (German acronym FaBel) contains 33 items with response choices ranging from 1 "I totally agree" to 4 "I totally disagree" on a four-point Likert scale. It is used to assess the impact of chronic diseases

in children on the family in the five dimensions: parents' daily social burden, personal burden, siblings' burden, financial burden, and problems in coping. Each of the five subscores and the total score (based on the 4 subscores, that of siblings' burden excluded) have a summary score ranging from 1 to 4, with higher scores indicating a larger family burden.

Utilisation of healthcare services, unmet needs and satisfaction with healthcare. The Child Healthcare Questionnaire on satisfaction, utilisation and needs (CHC-SUN) was used to evaluate paediatric healthcare services from the perspective of parents (23). The CHC-SUN is a 40-item instrument with 14 single items related to the provision of services (module 1), 26 items related to 6 aspects of satisfaction with care (module 2), and 1 item on general satisfaction with care.

Module 1 identifies the utilisation of health services (including 15 specific services, such as physiotherapy, occupational therapy, rehabilitation services) within the previous 12 months, difficulties in accessing services and unmet needs. In this study, the use of at least two services was considered to indicate the use of multi-professional care. When parents indicated that they needed a particular service but did not receive it, this was considered an unmet need.

Module 2 assesses the consumers' appraisal of the quality and process of care provision regarding six different areas: information at diagnosis (5 items), care coordination (3 items), child-centred care (5 items), the hospital environment (4 items), the doctors' behaviour (7 items), and school services (2 items). In addition, it is asked to assess the health care received in general. Satisfaction with care is assessed by a 5-point Likert scale (not satisfied, partially satisfied, satisfied, very satisfied, extremely satisfied). The respective scores range from 1 to 5, with higher values indicating higher satisfaction.

Socioeconomic status (SES). An established German multidimensional aggregated index was used to calculate the socioeconomic status (SES) of a patient (24). As the parents' work sta-

tus is not assessed in ICON, the calculation of this index was modified to be based only on the parental educational level (including school education and vocational training) and the net household income. The study by Listing *et al.* includes more details (25). According to Lampert *et al.* (24), the highest educational level of the mother or father was used to assign the specific education score (from low [1] to high [7]). The household equivalence net income score was calculated by dividing the net income by the square root of the number of family members (ranging from low (1) to high (7) (<http://www.oecd.org/eis/soc/OECD-Note-EquivalenceScales.pdf>). Based on the educational level of parents, missing data on net income were calculated by multiple imputations. One imputation was performed to calculate the household equivalence net income score since this was not a main outcome parameter. The lower and upper quintiles of the sum of the education and income scores (6.55, 12.1) were used as cut-off points to define low, moderate, and high SESs.

Statistics

Descriptive statistics were used to report the distribution of the data. All data are expressed as the mean or median (with the standard deviation [SD] or range), as appropriate. Univariable linear regression analysis for continuously distributed variables and the chi-squared test for categorical variables were used to assess the differences across JIA categories with regard to disease parameters, treatments, the frequency of the utilisation of services and perceived unmet needs.

Multiple logistic regression analyses were conducted to study the associations between sex, age, migration background (if one parent was not born in Germany, the patient was considered to have a migration background), JIA category, SES, family burden (FaBel), HRQoL (PedsQL), the use of multi-professional care, reported unmet needs (at least one) and dissatisfaction (not satisfied or partly satisfied) with care in general. Multivariable analyses were conducted with use of multi-professional care, reported unmet needs and

dissatisfaction as dependent variables and the independent variables age and SES included as continuous variables and the sum scores of the FaBel and PedsQL.

The level of significance was 5%, and analyses were performed with IBM® SPSS Statistics Version 20 (SPSS Inc. an IBM Company, Chicago, Illinois, USA).

Results

Patients and disease characteristics

In this analysis, 835 (87.5%) out of a total of 954 JIA patients enrolled in ICON were considered. Of the remaining 119 patients, 18 had not completed the 3-month follow-up and 101/119 had not completed the parent questionnaire at the three-month follow-up. However, the assessed group did not differ from the entire ICON group in terms of JIA category, disease activity, and disease duration at baseline (data not shown). The patients' characteristics are presented in Table I. The median duration from symptom onset to diagnosis was 2.9 months (IQR 1.0–7.0). The median time from referral to the 1st visit to the paediatric rheumatologist was 14 days (IQR 5–28), with 93% of patients having had the 1st appointment with the rheumatologist within 60 calendar days.

Patients and their families were from large cities (>100,000 inhabitants) in 34%, medium-sized cities (>20,000–≤100,000 inhabitants) in 27% and rural areas (≤20,000) in 39%.

Utilisation of healthcare services within the previous 12 months

Because patients were recruited for ICON from paediatric rheumatology centres, all patients had received specialised care. Approximately two-thirds of the families (68%) stated that it was not difficult to obtain access to paediatric rheumatology care, and 12% found it to be difficult to extremely difficult. All patients had undergone drug treatment within the previous 12 months. At the assessment, 85% were treated with medication: 67% were treated with non-steroidal anti-inflammatory drugs, 24% were treated with glucocorticoids and 59% were treated with

Table I. Patient characteristics at assessment.

Parameters	
n	835
Female / male, n (%)	566 (67.8) / 269 (32.2)
Age at diagnosis (years), median (IQR)	6.9 (3.0–11.8)
Time from diagnosis to assessment (months), median (IQR)	4.7 (3.6–7.4)
Disease duration (months), median (IQR)	8.8 (6.1–14.0)
Migration background, n (%)	174 (20.8)
Socioeconomic status (range 2–14), mean (SD)	8.7 (3)
low, n (%)	252 (31.5)
moderate, n (%)	393 (49.2)
high, n (%)	154 (19.3)
JIA category	
Oligoarthritis, n (%)	389 (46.6)
RF-negative polyarthritis, n (%)	228 (27.3)
RF-positive polyarthritis, n (%)	13 (1.6)
Psoriatic arthritis, n (%)	32 (3.8)
Enthesitis-related arthritis, n (%)	87 (10.4)
Systemic arthritis, n (%)	29 (3.5)
Undifferentiated arthritis, n (%)	57 (6.8)
Disease activity	
Number of active joints, mean (SD)	4.3 (7.2)
cJADAS-10 (range 0–30), mean (SD)	9.8 (6.3)
Parent-reported disease parameters	
Functional status (CHAQ, range 0–3), mean (SD)	0.38 (0.58)
Quality of life (PedsQL 4.0, 3.0, range 0–100)	
Physical Health Summary Score, mean (SD)	65.9 (24.7)
Psychosocial Health Summary Score, mean (SD)	73.9 (17.3)
Total Scale Score, Mean (SD)	71.3 (18.5)
Family burden (FaBel, range 1–4, 4 highest burden), mean (SD)	1.65 (0.42)

IQR: interquartile range; SD: standard deviation; JIA: juvenile idiopathic arthritis; RF: rheumatoid factor; CHAQ: Childhood Health Assessment Questionnaire; cJADAS-10: clinical Juvenile Arthritis Disease Activity Score; PedsQL: Pediatric Quality of Life Inventory; FaBel: Family Burden Questionnaire.

disease-modifying anti-rheumatic drugs (DMARDs). Fifty-seven percent of the patients received conventional synthetic DMARDs, and 8.0% received biologic DMARDs. Most families (86%) reported not having difficulty in obtaining prescriptions for the drugs. However, almost a quarter of the families were rather dissatisfied (6.1% not satisfied, 17.5% partially satisfied) with the currently prescribed drugs; on the other hand, 38% were very or extremely satisfied.

The JIA category-specific use of prescribed drugs, along with some disease parameters, is shown in Supplementary Table S1.

The services utilised by the patients and their families, in addition to drug therapy, are shown in Figure 1, and the services most frequently used by patients according to the different JIA categories are given in Supplementary Table S1. Most families (726, 87%) had used at least one of the 15 specified supportive services, and half (420, 50%) had used multi-professional care (at least

two services). On average, families had utilised two (± 1.8) services, with children with polyarticular-onset or systemic JIA showing the highest rate of service use among all the JIA patients (Suppl. Table S1).

Unmet needs

Almost one-third of families (n=259, 31.5%) reported that they had not received the service that they needed. In total, 14.2% reported an unmet need for one of the 15 specified services, 6.2% reported an unmet need for two services, 3.3% for three services, and 7.8% for at least 4 services. The average number of reported unmet needs was 1 ± 2.5 and was the highest in patients with polyarticular and systemic JIA. Figure 1 illustrates that the most frequent reports were of unmet needs related to health education, rehabilitation services, and psychological counselling.

Satisfaction with healthcare

Figure 2 shows parents' satisfaction

with the six different aspects of care and their satisfaction with care in general. With regard to the specific areas of care, the doctors' behaviour and child-centred care had the highest levels of satisfaction, and school services had the lowest levels. Regarding the 26 items addressing the 5 different areas of care (Suppl. Fig. S1), the families were most satisfied with the doctors' expertise, behaviour and appreciation of parental skills, all of which belong to the doctors' behaviour care aspect. On the other hand, the families were most dissatisfied with the time needed to diagnose JIA and with the teachers' knowledge and consideration of the child's condition.

Overall, 31% of the families were dissatisfied, and 40% were partly satisfied with at least one of the 26 single aspects of care. There were no differences in dissatisfaction between the different JIA categories, with one exception. Parents of children with systemic arthritis were more likely than the other parents to be dissatisfied with how their feelings were considered at the time of diagnosis (n=13/28, 46.4% vs. n=168/784, 21.4%, $p=0.002$).

Regarding the overall treatment, only 7% of the parents were rather dissatisfied (dissatisfied or partly satisfied) with the overall healthcare provided to their children, and almost 60% were very or extremely satisfied.

Factors associated with the utilisation of multi-professional care, unmet needs and dissatisfaction

The use of multi-professional care was significantly associated with the age of the patient (OR 0.95, $p=0.01$), the diagnosis of oligoarthritis (OR 0.59, $p=0.005$) and the patient's HRQoL (OR 0.95, $p<0.001$) (Table II). The younger the child (OR 0.95, $p=0.018$) was, the larger the family burden (OR 3.66, $p<0.001$) and the lower the HRQoL of the child (OR 0.97, $p<0.001$), the higher was the frequency of perceived and reported unmet needs. The child's HRQoL (OR 0.97, $p=0.004$) and female sex (OR 2.3, $p=0.027$) were significantly associated with dissatisfaction with healthcare in general. In contrast, neither having a migration background nor

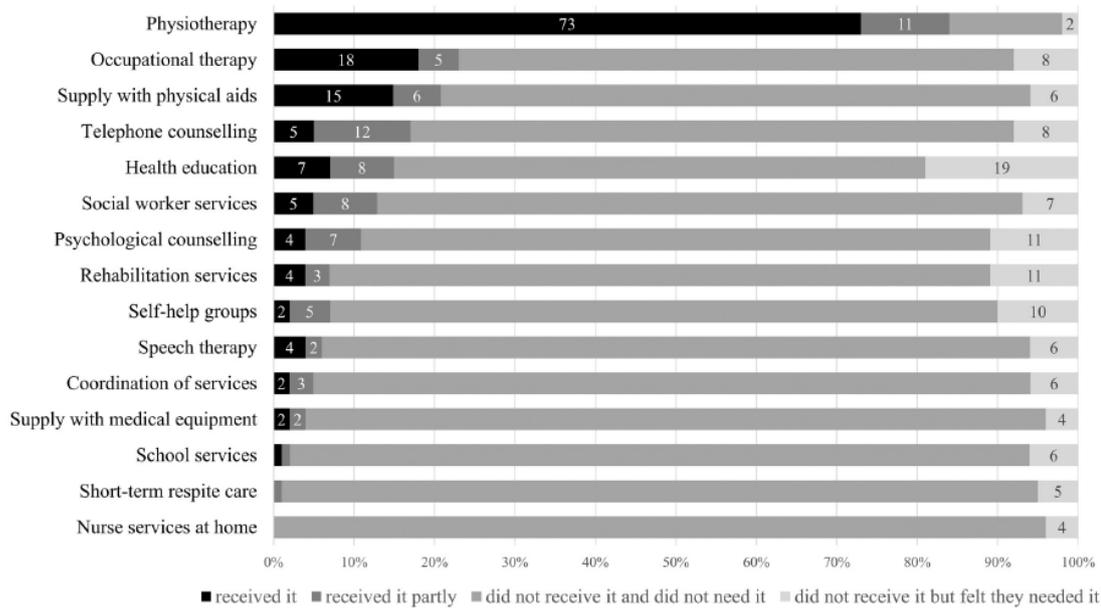


Fig. 1. Patients/parents (in %) who used specific services (in order of total frequency) and perceived an unmet need for certain services (response choice option "not received, but needed").

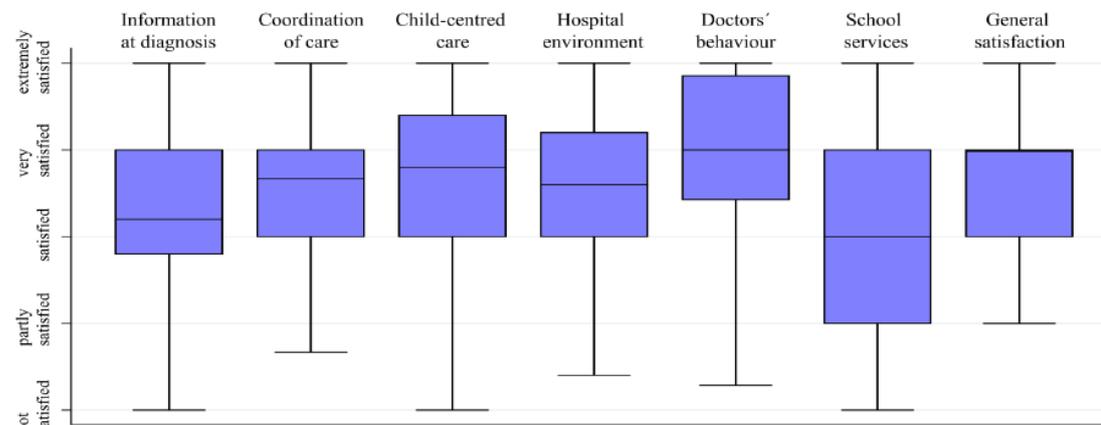


Fig. 2. Satisfaction with different areas of care and with care in general is illustrated by box plots (from upper to lower quartile with median and whiskers from minimum to maximum).

the SES were associated with access to and the utilisation of care services, unmet needs or dissatisfaction with care (Table II).

Discussion

In this first multicentre evaluation of paediatric rheumatology care, conducted in Germany and involving 835 families with children with early JIA, no

inequalities in access to and the use of services among individuals with different migration or socioeconomic backgrounds were found. Moreover, a high degree of satisfaction with the numerous services used during the first months of specialised care was noticed. However, unmet needs related to and dissatisfaction with some aspects of care from the parents' perspective were also revealed.

It is important to be aware of these perceived deficits in care, as they can affect the family's positive interaction with the healthcare system and reduce the likelihood of positive outcomes (23, 26). Healthcare for children with JIA has changed significantly over the last two decades, regarding access to paediatric rheumatologists and advancements in treatment options, imaging technolo-

Table II. Parameters associated with multi-professional care, unmet needs and dissatisfaction with care in general (multivariable analysis).

Parameter	Multi-professional care (usage of at least two services out of 15)			Unmet needs (≥1 of the 15 services)			Dissatisfaction with care in general (not satisfied or partly satisfied)		
	no	yes	OR (95%CI), p-value	no	yes	OR (95%CI), p-value	no	yes	OR (95%CI), p-value
Female gender	273 (67.7%)	286 (68.1%)	0.97 (0.67–1.39), 0.851	389 (69.0%)	170 (65.6%)	0.90 (0.60–1.33), 0.585	502 (66.8%)	44 (77.2%)	2.30 (1.10–4.82), 0.027
Age in years, mean (SD)	8.2 (4.9)	7.6 (4.8)	0.95 (0.92–0.99), 0.010	8.0 (4.9)	7.5 (4.8)	0.95 (0.92–0.99), 0.018	7.9 (4.8)	8.9 (5.0)	1.05 (0.99–1.12), 0.111
Migration background	93 (24.0%)	75 (18.8%)	0.74 (0.49–1.13), 0.161	122 (22.9%)	46 (18.2%)	0.64 (0.40–1.01), 0.053	155 (21.7%)	10 (17.5%)	0.90 (0.44–1.84), 0.767
SES score*, mean (SD)	8.6 (3.1)	8.8 (3.0)	1.05 (1.00–1.11), 0.062	8.7 (3.0)	8.7 (3.1)	1.03 (0.97–1.09), 0.285	8.7 (3.1)	8.3 (2.9)	0.98 (0.89–1.07), 0.641
JIA category									
Systemic JIA	15 (3.7%)	14 (3.3%)	0.66 (0.33–1.34), 0.250	19 (3.4%)	10 (3.9%)	0.62 (0.26–1.48), 0.285	25 (3.3%)	3 (5.3%)	2.44 (0.73–8.17), 0.149
Oligoarthritis	219 (54.3%)	163 (38.8%)	0.59 (0.40–0.86), 0.005	281 (49.8%)	101 (39.0%)	0.59 (0.41–0.86), 0.006	348 (46.3%)	26 (45.6%)	1.11 (0.59–2.06), 0.750
Psoriatic arthritis	13 (3.2%)	19 (4.5%)	1.20 (0.58–2.48), 0.622	21 (3.7%)	11 (4.3%)	0.80 (0.39–1.64), 0.535	31 (4.1%)	1 (1.8%)	0.31 (0.06–1.73), 0.181
Enthesitis-related arthritis	48 (11.9%)	38 (9.1%)	0.69 (0.41–1.16), 0.158	58 (10.3%)	28 (10.8%)	0.98 (0.57–1.66), 0.926	78 (10.4%)	8 (14.0%)	1.96 (0.81–4.71), 0.135
RF-positive polyarthritis	3 (0.7%)	10 (2.4%)	2.47 (0.63–9.67), 0.193	5 (0.9%)	8 (3.1%)	3.26 (1.07–9.90), 0.037	8 (1.1%)	3 (5.3%)	3.07 (0.69–13.62), 0.140
RF-negative polyarthritis	78 (19.4%)	148 (35.2%)	1.40 (0.93–2.11), 0.105	146 (25.9%)	80 (30.9%)	0.91 (0.61–1.35), 0.637	207 (27.5%)	15 (26.3%)	0.77 (0.37–1.61), 0.495
FaBel*, Burden total, mean (SD)	1.6 (0.3)	1.8 (0.4)	1.55 (0.92–2.60), 0.099	1.6 (0.3)	1.9 (0.4)	3.66 (2.23–6.01), <0.001	1.7 (0.4)	1.8 (0.5)	1.79 (0.73–4.42), 0.207
PedsQL*, total, mean (SD)	86.5 (12.1)	75.8 (16.4)	0.95 (0.94–0.96), <0.001	84.3 (13.3)	74.3 (17.2)	0.97 (0.95–0.98), <0.001	81.9 (14.5)	72.3 (18.8)	0.97 (0.95–0.99), 0.004

SES: socioeconomic status; FaBel: Family Burden Questionnaire; PedsQL: Pediatric Quality of Life Inventory; JIA: juvenile idiopathic arthritis; RF: rheumatoid factor; OR: odds ratio; CI: confidence interval;

a) SES: the score range is 2–14, whereby a higher score indicates a higher SES; b) FaBel: each subscore as well as the total score range from 1 to 4 (1 = no burden; 4 = heavy burden); c) PedsQL: the score range is 0–100, whereby a higher score indicates a higher health-related quality of life.

gies and parent and patient education programmes (27). There is increasing evidence that new treatment strategies involving the early use of effective drugs have improved the outcomes of patients (28–31). Much less information is available about the performance of the systems of care and how to optimise care delivery for children with JIA and their disease-related outcomes and quality of life (32). Various groups and organisations have proposed service delivery quality measures (11, 33, 34). In Germany, the newly developed guidelines for the treatment of children and adolescents with JIA (35) contain some statements on the desired quality of care (e.g. timely and holistic multidisciplinary care), but performance measures have not yet been proposed.

In ICON, a JIA inception cohort study, the CHC-SUN (23) has been used since the start of the study to evaluate health services for JIA and their impact on the outcomes of JIA. At the first service evaluation, an average of five months after the diagnosis of JIA, most of the patients had used services, such as physiotherapy (in 82%) or occupational therapy (in 24%), in addition to anti-rheumatic medications. The patients in this study had undergone physiotherapy and occupational therapy more frequently than did those whose parents participated in an international survey within the SHARE initiative (15). The survey by Dijkhuizen was conducted in

21 European countries, Israel and Turkey, and included 622 parents. Although relatively more parents of children with systemic or polyarticular-onset JIA with long disease durations had participated in this survey compared to the ICON study (46% vs. 32%), fewer patients in the former study had undergone physiotherapy (68%) or occupational therapy (16%). Despite the extensive use of services in this study, including multi-professional care by 50% of patients, almost one in three families reported an unmet need in at least one aspect of care. Unmet needs were associated with parents' views on JIA-related social, financial, sibling-related and personal burdens of care. This finding is in line with a study by Thyen who found that unmet health needs predict the level of family burden (36).

In the present study, 19% of the parents stated that they had not received adequate health education, which was the largest need reported. There is a well-known knowledge gap, especially at the onset of a chronic disease (15). This problem related to information is important, as an effective partnership and shared decisions between the parents/patient and the healthcare team require an understanding of the disease and available treatment options. A linguistic analysis of the language patterns of parents during the time around the diagnosis of systemic JIA illustrated the importance of provider empathy during

the first interactions with the family and the need for healthcare providers to tailor their language and advice according to the stage of disease diagnosis, treatment and parent's current knowledge (37). However, communication problems with the medical provider did not seem to play a role in this study, as the families were very satisfied with the rheumatologists' behaviour. Rather, the families wanted additional support, e.g. from psychologists and self-help resources. In addition to self-help groups and other organisations, other supportive measures such as telenursing may be able to meet this need. A multisite randomised crossover trial in Switzerland showed that regularly tailored individualised affective support, health information, and assistance in decision making by specialist nurses had a positive impact on several outcomes, including satisfaction (38).

Despite high satisfaction with most areas of care, approximately one in three families were dissatisfied with at least one aspect of care. The consumers were most often dissatisfied with the time to JIA diagnosis and the school services. The median time from symptom onset to diagnosis was 2.9 months, and the median time from referral to the 1st visit to the paediatric rheumatologist was 14 days. Even though the latter was much shorter than the 60 days reported in an earlier study in Germany (39), one in two patients received specialised care

later than recommended (35). With regard to the proposed treatment approach, which includes an early start of a targeted treatment (40), actions need to be taken to further reduce the time to diagnosis.

In addition, families were dissatisfied with the teachers' knowledge and consideration of the child's condition. School services are not included in specialist care in the strict sense. However, high-quality care is currently considered care that takes into account the social context of the patient to meet his or her complex medical, educational, social and emotional needs (9, 23, 41). Self-esteem, school functioning and sports participation are essential components of development for all children and are among the most significant psychosocial issues that affect children and adolescents with chronic illness (42). The parents of this study and other studies (43) emphasised that the participation of people with chronic diseases in education and society is closely linked to health issues.

Child's HRQoL was associated with dissatisfaction with care but also with the rate of service utilisation and unmet needs. Due to the cross-sectional study design, no conclusions can be drawn as to whether perceived deficits in care resulted in a lower HRQoL or *vice versa*. Nevertheless, patient HRQoL seems to be a useful indicator for identifying families requiring specific attention and support at an early stage of care. The results of a recent Childhood Arthritis and Rheumatology Research Alliance survey of families of patients with juvenile myositis support the importance of HRQoL as a quality measure. Here, families rated overall HRQoL as the most important quality measure, even more important than a timely diagnosis and access to rheumatology (44). Thus, its regular assessment in daily practice seems to be useful.

This cross-sectional study has limitations that must be taken into account when the data are interpreted. For ICON, the patients were recruited from 11 large paediatric rheumatology centres. Accordingly, care was evaluated in well-equipped, highly specialised centres rather than at the population level,

so the number of unmet needs and level of dissatisfaction may have been underestimated. On the other hand, ICON is a prospective multi-centre cohort study with a large sample size, and approximately one-third of all patients newly diagnosed with JIA in Germany during the recruitment period were enrolled at the 11 sites of different levels of care (university hospitals, general clinics, private practicing rheumatologists). In addition, the composition of the ICON cohort is similar to that of population-based cohorts. Thus, a representative analysis of the paediatric rheumatology care situation can be assumed.

In sum, according to parents' experience and satisfaction with their child's care, performance at the system level can be further improved by diagnosing JIA earlier, providing additional information and support at disease onset, and ensuring that the child's social environment is taken into account. This study has not yet shown whether perceived deficits and dissatisfaction with care have long-term detrimental effects. The subsequent follow-ups of the ICON cohort and data analyses will address this issue.

Acknowledgements

We thank all physicians and in particular all patients and their parents for their participation in ICON.

References

- PETTY RE, SOUTHWOOD TR, MANNERS P *et al.*: International League of Associations for Rheumatology classification of juvenile idiopathic arthritis: second revision, Edmonton, 2001. *J Rheumatol* 2004; 31: 390-2.
- RINGOLD S, WALLACE CA, RIVARA FP: Health-related quality of life, physical function, fatigue, and disease activity in children with established polyarticular juvenile idiopathic arthritis. *J Rheumatol* 2009; 36: 1330-6.
- KRAUSE ML, ZAMORA-LEGOFF JA, CROWSON CS, MUSKARDIN TW, MASON T, MATTESSON EL: Population-based study of outcomes of patients with juvenile idiopathic arthritis (JIA) compared to non-JIA subjects. *Semin Arthritis Rheum* 2017; 46: 439-43.
- GLERUP M, RYPDAL V, ARNSTAD ED *et al.*: Long-term outcomes in juvenile idiopathic arthritis: 18 years of follow-up in the population-based Nordic Juvenile Idiopathic Arthritis (JIA) cohort. *Arthritis Care Res (Hoboken)* 2020; 72: 507-16.
- BERTHOLD E, MÅNSSON B, KAHN R: Outcome in juvenile idiopathic arthritis: a pop-

- ulation-based study from Sweden. *Arthritis Res Ther* 2019; 21: 218.
- MCCANN LJ, WEDDERBURN LR, HASSON N: Juvenile idiopathic arthritis. *Arch Dis Child Educ Pract* 2006; 91: 29-36.
- TOLLISEN A, SELVAAG AM, AULIE HA *et al.*: Physical functioning, pain and health-related quality of life in adults with juvenile idiopathic arthritis: a longitudinal 30-year follow-up study. *Arthritis Care Res (Hoboken)* 2018; 70: 741-9.
- CELLUCCI T, GUZMAN J, PETTY RE *et al.*: Management of Juvenile Idiopathic Arthritis 2015: A Position Statement from the Pediatric Committee of the Canadian Rheumatology Association. *J Rheumatol* 2016; 43: 1773-6.
- DAVIES K, CLEARY G, FOSTER H, HUTCHINSON E, BAILDAM E: BRITISH SOCIETY OF PAEDIATRIC AND ADOLESCENT RHEUMATOLOGY: BSPAR Standards of Care for children and young people with juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatology (Oxford)* 2010; 49: 1406-8.
- MCKERLANE F, FOSTER HE, ARMITT G *et al.*: Development of a national audit tool for juvenile idiopathic arthritis: a BSPAR project funded by the Health Care Quality Improvement Partnership. *Rheumatology (Oxford)* 2018; 57: 140-51.
- BARBER CEH, TWILT M, PHAM T *et al.*: A Canadian evaluation framework for quality improvement in childhood arthritis: key performance indicators of the process of care. *Arthritis Res Ther* 2020; 22: 53.
- PASSO MH, TAYLOR J: Quality improvement in pediatric rheumatology: what do we need to do? *Curr Opin Rheumatol* 2008; 20: 625-30.
- THORNTON J, LUNT M, ASHCROFT DM *et al.*: Costing juvenile idiopathic arthritis: examining patient-based costs during the first year after diagnosis. *Rheumatology (Oxford)* 2008; 47: 985-90.
- SWART J, GIANCANE G, HORNEFF G *et al.*: Pharmacovigilance in juvenile idiopathic arthritis patients treated with biologic or synthetic drugs: combined data of more than 15,000 patients from Pharmachild and national registries. *Arthritis Res Ther* 2018; 20: 285.
- VAN DIJKHUIZEN EHP, EGERT T, EGERT Y *et al.*: Patient's experiences with the care for juvenile idiopathic arthritis across Europe. *Pediatr Rheumatol Online J* 2018; 16: 10.
- SEID M, VARNI JW, KURTIN PS: Measuring quality of care for vulnerable children: challenges and conceptualization of a pediatric outcome measure of quality. *Am J Med Qual* 2000; 15: 182-8.
- INSTITUTE OF MEDICINE (US) COMMITTEE ON QUALITY OF HEALTH CARE IN AMERICA. CROSSING THE QUALITY CHASM: A New Health System for the 21st Century [Internet]. Washington (DC): National Academies Press (US); 2001 [cited 2020 Nov 18]. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK222274/>
- SENGLER C, KLOTSCHKE J, NIEWERTH M *et al.*: The majority of newly diagnosed patients with juvenile idiopathic arthritis reach an inactive disease state within the first year of specialised care: data from a German incep-

- tion cohort. *RMD Open* 2015; 1: e000074.
19. FOELDVARI I, RUPERTO N, DRESSLER F *et al.*: The German version of the Childhood Health Assessment Questionnaire (CHAQ) and the Child Health Questionnaire (CHQ). *Clin Exp Rheumatol* 2001; 19 (Suppl. 23): S71-5.
 20. NIEWERTH M, MINDEN K, BIEDERMANN T, SCHONTUBE M, ZINK A: Pediatric Quality of Life Inventory: Evaluierung eines deutschen Messinstrumentes zur Beurteilung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität bei Kindern und Jugendlichen mit juveniler idiopathischer Arthritis. *Aktuelle Rheumatol* 2003; 28: F7.
 21. CONSOLARO A, GIANCANE G, SCHIAPPAPIETRA B *et al.*: Clinical outcome measures in juvenile idiopathic arthritis. *Pediatr Rheumatol Online J* 2016; 14: 23.
 22. RAVENS-SIEBERER U, MORFELD M, STEIN RE, JESSOP DJ, BULLINGER M, THYEN U: [The testing and validation of the German version of the impact on family scale in families with children with disabilities]. *Psychother Psychosom Med Psychol* 2001; 51: 384-93.
 23. SCHMIDT S, THYEN U, CHAPLIN J, MUELLER-GODEFFROY E; EUROPEAN DISABKIDS GROUP: Cross-cultural development of a child health care questionnaire on satisfaction, utilization, and needs. *Ambul Pediatr* 2007; 7: 374-82.
 24. LAMPERT T, MUTERS S, STOLZENBERG H, KROLL LE; KIGGS STUDY GROUP: [Measurement of socioeconomic status in the KiGGS study: first follow-up (KiGGS Wave 1)]. *Bundesgesundheitsblatt Gesundheitsforschung Gesundheitsschutz* 2014; 57: 762-70.
 25. LISTING M, MÖNKEMÖLLER K, LIEDMANN I *et al.*: The majority of patients with newly diagnosed juvenile idiopathic arthritis achieve a health-related quality of life that is similar to that of healthy peers: results of the German multicenter inception cohort (ICON). *Arthritis Res Ther* 2018; 20: 106.
 26. SEID M, OPIARI-ARRIGAN L, GELHARD LR, VARNI JW, DRISCOLL K: Barriers to care questionnaire: reliability, validity, and responsiveness to change among parents of children with asthma. *Acad Pediatr* 2009; 9: 106-13.
 27. DOLEZALOVA P, ANTON J, AVGIN T *et al.*: The European network for care of children with paediatric rheumatic diseases: care across borders. *Rheumatology (Oxford)* 2019; 58: 1188-95.
 28. TER HAAR NM, VAN DIJKHUIZEN EHP, SWART JF *et al.*: Treatment to target using recombinant interleukin-1 receptor antagonist as first-line monotherapy in new-onset systemic juvenile idiopathic arthritis: results from a five-year follow-up study. *Arthritis Rheumatol* 2019; 71: 1163-73.
 29. MINDEN K, HORNEFF G, NIEWERTH M *et al.*: Time of disease-modifying antirheumatic drug start in juvenile idiopathic arthritis and the likelihood of a drug-free remission in young adulthood. *Arthritis Care Res (Hoboken)* 2019; 71: 471-81.
 30. CHHABRA A, ROBINSON C, HOUGHTON K *et al.*: Long-term outcomes and disease course of children with juvenile idiopathic arthritis in the ReACC-Out cohort: a two-centre experience. *Rheumatology (Oxford)* 2020; 59: 3727-30.
 31. KLEIN A, MINDEN K, HOSPACH A *et al.*: Treat-to-target study for improved outcome in polyarticular juvenile idiopathic arthritis. *Ann Rheum Dis* 2020; 79: 969-74.
 32. LOVELL DJ, PASSO MH, BEUKELMAN T *et al.*: Measuring process of arthritis care: a proposed set of quality measures for the process of care in juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis Care Res (Hoboken)* 2011; 63: 10-6.
 33. PEDIATRIC RHEUMATOLOGY CARE AND OUTCOMES IMPROVEMENT NETWORK. About PR_COIN. [Internet]. PR-COIN [cited 2020 Nov 18]; Available from: <https://www.pr-coin.org/about-network>
 34. MCERLANE F, ARMITT G, COBB J *et al.*: CAPTURE-JIA: a consensus-derived core dataset to improve clinical care for children and young people with juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatology (Oxford)* 2020; 59: 137-45.
 35. OOMMEN PT, HINZE C, HOLZINGER D, HOSPACH A, MINDEN K, SCHÜTZ C: Therapie der juvenilen idiopathischen Arthritis (JIA). *Arthritis Rheuma* 2020; 40: 260-9.
 36. THYEN U, SPERNER J, MORFELD M, MEYER C, RAVENS-SIEBERER U: Unmet health care needs and impact on families with children with disabilities in Germany. *Ambul Pediatr* 2003; 3: 74-81.
 37. MODICA RF, LOMAX KG, BATZEL P, SHAPARDANIS L, KATZER KC, ELDER ME: The family journey-to-diagnosis with systemic juvenile idiopathic arthritis: a cross-sectional study of the changing social media presence. *Open Access Rheumatol* 2016; 8: 61-71.
 38. RAMELET A-S, FONJALLAZ B, RIO L *et al.*: Impact of a nurse led telephone intervention on satisfaction and health outcomes of children with inflammatory rheumatic diseases and their families: a crossover randomized clinical trial. *BMC Pediatr* 2017; 17: 168.
 39. TZARIBACHEV N, BENSELER SM, TYRRELL PN, MEYER A, KUEMMERLE-DESCHNER JB: Predictors of delayed referral to a pediatric rheumatology center. *Arthritis Rheum* 2009; 61: 1367-72.
 40. RAVELLI A, CONSOLARO A, HORNEFF G *et al.*: Treating juvenile idiopathic arthritis to target: recommendations of an international task force. *Ann Rheum Dis* 2018; 77: 819-28.
 41. MUNRO J, MURRAY K, BOROS C *et al.*: Australian Paediatric Rheumatology Group standards of care for the management of juvenile idiopathic arthritis. *J Paediatr Child Health* 2014; 50: 663-6.
 42. VITULANO LA: Psychosocial issues for children and adolescents with chronic illness: self-esteem, school functioning and sports participation. *Child Adolesc Psychiatr Clin N Am* 2003; 12: 585-92.
 43. VONNEILICH N, LÜDECKE D, KOFAHL C: The impact of care on family and health-related quality of life of parents with chronically ill and disabled children. *Disabil Rehabil* 2016; 38: 761-7.
 44. TORY HO, CARRASCO R, GRIFFIN T *et al.*: Comparing the importance of quality measurement themes in juvenile idiopathic inflammatory myositis between patients and families and healthcare professionals. *Pediatr Rheumatol Online J* 2018; 16: 28.

Lebenslauf

Mein Lebenslauf wird aus datenschutzrechtlichen Gründen in der elektronischen Version meiner Arbeit nicht veröffentlicht. Michaela Heinrich-Rohr

Publikationsliste

M. Heinrich-Rohr, K. Mönkemöller, M. Niewerth, C. Sengler, I. Liedmann, T. Kallinich, G. Horneff, D. Windschall, J.-P. Haas, F. Dressler, I. Foeldvari, F. Weller-Heinemann, T. Hospach, J. Kuemmerle-Deschner, D. Foell, J. Klotsche, K. Minden: Consumer perspective on healthcare services for juvenile idiopathic arthritis: results of a multicentre JIA inception cohort study. Clin Exp Rheumatol 2021. (Impact-Faktor: 3,319)

K. Raile, K. Boss, K. Braune, **M. Heinrich-Rohr** (2020): "Care of children and adolescents with type 1 diabetes: solutions for technical and psychosocial challenges". Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz. DOI: 10.1007/s00103-020-03162-3. (Impact-Faktor: 1,513)

I. Rohr, S. Alavi, R. Richter, M. Keller, R. Chekerov, **M. Heinrich**, C. Taskiran, F. Joly, P. Wolfrum-Ristau, A. du Bois, DA. Gornjec, I. Vergote, P. Achimas, D. Lorusso, J. Maenpaa, J. Sehouli (2020): Expectations and preferences of patients with primary and relapsed ovarian "cancer to maintenance therapy: A NOGGO/ENGOT-ov22 and GCIG survey (Expression IV)". International Journal of Gynecological Cancer. DOI: 10.1136/ijgc-2019-000892. (Impact-Faktor: 3,437)

M. Heinrich, K. Boß, J. Wendenburg, D. Hilgard, S v. Sengbusch, T.M. Kapellen (2019): „Unzureichende Versorgung gefährdet Inklusion von Kindern mit Diabetes mellitus Typ 1“. Diabetologie und Stoffwechsel. DOI: 10.1055/a-0970-8886. (Impact-Faktor: 0,795)

I. Rohr; E. Braicu, **M. Heinrich**, R. Richter, R. Chekerov, R. Dechend, H. Heidecke, D. Dragun, R. Schaefer; A. En-Nia, Jo. Lindquist, J. Sehouli, P. Mertens (2016): "Y-box protein-1/p18 as novel serum marker for ovarian cancer diagnosis: A study by the Tumor Bank Ovarian Cancer (TOC)". Cytokine. Volume 85. Pages 157–164. (Impact-Faktor: 7,144)

I. Rohr, I. Braicu, R. Zeillinger, **M. Heinrich**, R. Richter, N. Concin, I. Vergote, S. Mahner, T. van Gorp, F. Trillsch, D. Cacsire-Tong, R. Chekerov, J. Sehouli (2016): Role of IGF1 in primary ovarian cancer - a study of the OVCAD European Consortium. Geburtshilfe Frauenheilkunde; 74 - PO_Onko02_02 DOI: 10.1055/s-0034-1388347. (Impact-Faktor: 1,070)

I. Rohr, **M. Heinrich**, M. Keller, U. Torsten, H. Mecke, B. Müller, J. Bryce, J. Sehouli (2014): MITO 12 - pathway to diagnosis of ovarian cancer an observational retrospective multicentered study subgroup of the German data - Charité/ Vivantes

Netzwerk Berlin. Geburtshilfe Frauenheilkunde; 74 - PO_Onko09_07 DOI: 10.1055/s-0034-1388485. (Impact-Faktor: 0,936)

Danksagung

Ich bedanke mich bei Frau Prof. Dr. med. Kirsten Minden für ihre exzellente Betreuung und die Möglichkeit in Ihrer Arbeitsgruppe diese Promotion durchführen zu können. Für die wertvolle Zusammenarbeit mit ihr und dem Team – insbesondere Martina Niewerth, Ina Liedmann, Nadine Grösch und PD Dr. rer. nat. Jens Klotsche – bin ich sehr dankbar.

Ein liebevoller Dank geht auch an Christa Schütt-Heinrich und Martina Witte. Vielen Dank für die wertvolle Unterstützung.

Zuletzt möchte ich Irena Rohr und meinem Sohn Paul Ferdinand danken. Ich danke euch von Herzen!