

The background of the entire page is decorated with several red heart-shaped balloons of varying sizes, each attached to a thin blue string. The balloons are scattered across the white background, creating a festive and affectionate atmosphere.

"Het gaat je aan het hart ..."

Een onderzoek naar tevredenheid bij ouders van kinderen met een hartafwijking

*Scriptie voor het doctoraalexamen
orthopedagogiek
van Drs. H.M. Kox-Meenderink
Begeleiding Drs. I.P.R. Vermaes
Nijmegen, februari 2006*

Inhoudsopgave

<i>Samenvatting</i>	5
Inleiding	7
Theoretische achtergrond	8
<i>Hartafwijkingen</i>	8
<i>Ouders van een kind met een hartafwijking</i>	10
<i>Ervaren levenskwaliteit van ouders van een kind met een hartafwijking</i>	11
<i>Aanpassing aan chronische ziekte: een proces van stressverwerking</i>	12
<i>Het disability-stress-coping model</i>	13
Empirisch onderzoek bij ouders van een kind met een hartafwijking	16
<i>Psychologische adaptatie en kwaliteit van leven</i>	16
<i>Risicofactoren</i>	18
- <i>Ziektegebonden factoren</i>	18
- <i>Functionele zorginspanningen en psychosociale stressoren</i>	19
<i>Beschermende factoren</i>	20
- <i>Intrapersoonlijke factoren</i>	20
- <i>Sociaal-ecologische factoren</i>	20
- <i>Coping</i>	21
<i>Conclusie</i>	24
<i>Conceptueel model en vraagstelling</i>	24
<i>Onderzoeksvraag en hypotheses</i>	26

Methode	29
<i>Onderzoeksgroep</i>	29
<i>Procedure</i>	29
<i>Onderzoeksinstrumenten</i>	29
<i>Analysestrategie</i>	32
Resultaten	34
<i>Samenvatting</i>	39
Discussie	41
<i>Implicaties van dit onderzoek</i>	44
Bibliografie	45
<i>Referenties</i>	45
<i>Instrumenten</i>	47

Bijlage I: vragenlijst “Leren LEVEN met een kind met een hartafwijking”

Samenvatting

Probleemstelling: Dit onderzoek had tot doel inzicht te krijgen in factoren die de kwaliteit van leven belemmeren dan wel bevorderen bij ouders die een kind hebben met een hartafwijking. Enerzijds werd nagegaan in hoeverre de structurele en functionele beperkingen van de hartafwijking via ouderlijke percepties van opvoedingsstress negatief gerelateerd waren aan levenstevredenheid. Anderzijds werd onderzocht of en in hoeverre persoonlijke veerkracht en sociale ondersteuning een beschermende rol speelden. We baseerden ons hierbij op theoretische inzichten van het Disability-Stress-Coping model van Wallander en Varni (1989).

Methode: Aan dit onderzoek deden 37 ouders (34 moeders en 3 vaders) van kinderen met een middelgrote of complexe hartafwijking mee. Ze vulden een vragenlijst in die bestond uit: een checklist Ernst van de hartafwijking en functionele beperkingen (Task Force I, 2001), de ouderdomeinen van de Nijmeegse Ouderlijke Stress Index (NOSI; De Brock et al., 1992), de Satisfaction with Life Scale (Diener, et al., 1985), een verkorte schaal Ego-resiliency (Block, 1961/1978), en de schaal Sociale Ondersteuning uit het Grootchalig Veldonderzoek (GVO; Gerris et al., 1998). Door middel van t-toetsen werden de scores van ouders van kinderen met een hartafwijking op de satisfaction with Life Scale en de NOSI vergeleken met normgroep gegevens. Met behulp van regressieanalyses werd voorts nagegaan in hoeverre de voorspelde factoren variaties in de levenskwaliteit van ouders direct dan wel indirect verklaarden.

Resultaten: De kwaliteit van leven van ouders van een kind met een hartafwijking bleek lager te liggen dan die van de normgroep. Ook werd een verhoogde mate van opvoedingsstress gevonden, toegespitst op de subdomeinen Rolrestrictie en Gezondheid. Een deel van de variantie van opvoedingsstress werd significant verklaard door de functionele beperkingen van het kind. Met opvoedingsstress kon vervolgens een significant deel van de kwaliteit van leven van ouders verklaard worden. De ernst van de afwijking en de functionele beperkingen bleken geen directe variantie te bepalen in de levenskwaliteit van ouders bovenop het indirecte effect van opvoedingsstress. Voor de hypothese dat sociale ondersteuning een positieve bijdrage zou leveren aan de kwaliteit van leven van ouders werd niet voldoende bevestiging gevonden. Egoveerkracht daarentegen bleek een significant voorspellende waarde te hebben in de kwaliteit van leven van ouders. Met de variabelen uit dit onderzoek kon 52% van de variantie van de kwaliteit van leven van ouders van een kind met een

hartafwijking worden verklaard, waarbij ervaren opvoedingsstress en egoveerkracht de meest krachtige voorspellers bleken te zijn.

Discussie: *In grote lijnen toonde dit onderzoek aan dat de stress die voortkwam uit de opvoeding van een kind met een middelgrote of complexe hartafwijking de kwaliteit van leven van ouders negatief beïnvloedde. Anderzijds bleek egoveerkracht een belangrijk positieve rol te spelen in de kwaliteit van leven van ouders. Met deze gegevens kan een vertaalslag gemaakt worden naar doelgerichte interventies. In de eerste plaats lijkt het van belang om aan ouders van kinderen met een middelgrote of complexe hartafwijking structureel extra ondersteuning te bieden om de kwaliteit van hun leven te verhogen. Deze ondersteuning zou gericht moeten zijn op het verlagen van de ervaren stress van ouders, toegespitst op de vermindering van de concrete draaglast. Hierbij kan gedacht worden aan extra ondersteuning in de dagelijkse verzorging van kind, zodat ouders meer ruimte voor zichzelf krijgen. In de tweede plaats zou toegewerkt moeten worden naar interventies waarbij ouders geleerd wordt beter om te gaan met de onzekerheden die het leven met een hartekind met zich meebrengt. Begeleiding zou dan ook gericht moeten zijn op het vergroten van de egoveerkracht van ouders van een kind met een hartafwijking, bijvoorbeeld door middel van specifiek hiertoe ontwikkelde training.*

Inleiding

De laatste decennia zijn de levenskansen en de levenskwaliteit van kinderen met geboortefwijkingen opvallend toegenomen (Hamlett, Pellegrini & Katz, 1990). Dit geldt ook voor kinderen die geboren worden met een hartafwijking. Snelle ontwikkelingen op kindercardiologisch gebied (Gardner, Freeman, Black & Angelini, 1996; Moons, 2004) hebben de levenskansen van deze patiënten zodanig doen toenemen, dat tegenwoordig 90% van de kinderen die geboren worden met een aangeboren hartafwijking de volwassen leeftijd behalen (Moons, 2004).

Dit betekent echter niet, dat er in alle gevallen sprake is van volledig herstel: er blijven grenzen aan de medische mogelijkheden. Sommige afwijkingen zijn zodanig complex dat zij wel beheersbaar, maar niet te genezen zijn. Voor deze patiënten en hun gezinnen betekent dit dat zij hun leven lang geconfronteerd worden met de beperkingen die voortkomen uit de hartafwijking en dat zij zich daaraan moeten aanpassen.

Als gevolg van de groei van het aantal patiënten en gezinnen dat te maken krijgt met een aangeboren hartafwijking, is de interesse voor de kwaliteit van leven van hartpatiënten de laatste jaren toegenomen. Dit wordt weerspiegeld in het aantal wetenschappelijke publicaties op dit terrein (Moons, 2004). De achterliggende gedachte daarbij is dat wanneer beter inzicht wordt verkregen in de karakteristieke kenmerken van gezinnen en kinderen met een aangeboren hartafwijking, specifieke interventieprogramma's ontwikkeld kunnen worden ten behoeve van het welzijn van deze patiënten en hun omgeving.

In dit onderzoek staat de subjectief beleefde levenskwaliteit van ouders van kinderen met een hartafwijking centraal. Meer specifiek wordt een antwoord gezocht op de vraag in welke mate de ouderlijke beleving van de opvoeding van een hartekind samenhangt met ervaren levenskwaliteit. Daarnaast wordt onderzocht wat de rol is van persoonlijke veerkracht en sociale ondersteuning. Onderzoek naar factoren die samenhangen met de kwaliteit van ouderlijke adaptatie bij kinderen met een hartafwijking is beperkt voorhanden. In die zin wordt met dit onderzoek beoogd om de inzichten hierin te vergroten opdat opvoedingsondersteunende interventies zich specifiek kunnen richten op knelpunten en hulpbronnen die bij deze doelgroep ouders van belang zijn voor de kwaliteit van leven.

Theoretische achtergrond

Hartafwijkingen

In de International Classification of Functioning en Disability (ICF) wordt door de VN Wereld Gezondheids Organisatie (WHO, 2001) een systematische ordening aangebracht in de aspecten van het menselijk functioneren die gerelateerd kunnen zijn aan een gezondheidsprobleem. Het doel dat de WHO hiermee nastreeft is de ontwikkeling van een internationale gemeenschappelijke standaardtaal ten aanzien van ziekte, gezondheid en menselijk functioneren. In de ICF wordt het menselijk organisme vanuit twee invalshoeken beschreven: enerzijds in termen van de anatomie (structuur), anderzijds in termen van functies. Bij de beschrijving van hartafwijkingen in dit hoofdstuk zal dezelfde structuur worden aangehouden: eerst zullen afwijkingen in de structuur van het hart worden besproken, vervolgens zullen functionele aspecten aan de orde komen.

De term "aangeboren hartafwijking" is een algemene aanduiding voor structurele afwijkingen van het hart of van de grote vaten die reeds bij de geboorte aanwezig zijn. (Moons, 2004). Het percentage kinderen dat geboren wordt met een hartafwijking is ongeveer 0,8 % (Davis, Brown, Bakeman & Campbell, 1998; Goldberg, Morris, Simmons, Fowler & Levison, 1990). Jaarlijks worden in Nederland ongeveer 1400 kinderen geboren met een hartafwijking.

Defecten aan het hart kunnen ontstaan als gevolg van een afwijking in het erfelijkheidsmateriaal. Ook is het mogelijk dat de hartafwijking ontstaat door de invloed van beschadigende (teratogene) stoffen op de ontwikkeling van het hart tijdens de zwangerschap. Veruit de meeste aangeboren hartafwijkingen (90%) zijn echter niet geassocieerd met erfelijke of teratogene factoren, maar zijn vermoedelijk ontstaan als gevolg van een combinatie van een erfelijk aanleg met een (meestal onbekende) invloed van buitenaf. Dit wordt ook wel "multifactorieel" genoemd (Behrman, Kliegman & Jenson, 2000).

De term "aangeboren hartafwijking" omvat een breed spectrum aan hartdefecten met verschillende gradaties in ernst. De meest voorkomende hartafwijkingen zijn het Ventrikelseptumdefect, een gaatje in het boezemgedeelte van het hart; gevolgd door een Persistent Ductus Atreosis, het niet sluiten van de open verbinding tussen de longslagader en de aorta na de geboorte van het kind; de Tetralogie van Fallot, een meervoudige aangeboren afwijking waarbij het tussenschot tussen de slagaders scheef staat, wat een gat tussen de hartkamers, een te grote aorta, te nauwe longslagader, en een verdikte spierwand van de

rechter hartkamer tot gevolg kan hebben; het Atrikelseptumdefect, een gaatje in het kamergedeelte van het hart; een vernauwing van de aorta; en een Transpositie van de grote vaten, waarbij de aorta en de longslagader verwisseld zijn. De overige afwijkingen zijn individueel bepaald en vormen 1 tot 4% van de afwijkingen (Behrman et al., 2000)

Op basis van de oorspronkelijke diagnoses en de daarbij behorende behandelingen kunnen defecten worden ingedeeld in drie categorieën: “licht” “middelgroot” en “zwaar” (Warnes et al., 2001). Onder “lichte afwijkingen” vallen afwijkingen waarbij een maximum van één operatie of catheterisatie vereist is. Onder middelgrote afwijkingen vallen de afwijkingen waarvoor meer dan een operatie of catheterisatie nodig is. Grote afwijkingen hebben die patiënten die blauwzien (cyanotisch zijn), een saturatie (= het zuurstofgehalte in het bloed) hebben onder de 92%, en diegenen die te maken hebben met een monoventrikel (éénkamerhart). Ongeveer de helft van de aangeboren hartafwijkingen valt onder de eerste categorie afwijkingen, de tweede en derde categorie vormen de overige 50% (Behrman et al. 2000; Moons, 2004). Hoewel de bovengenoemde indeling een indicatie geeft ten aanzien van de ernst van de afwijkingen, is er sprake van extreme variatie binnen elke afwijking. Elke afwijking moet dan ook op individueel niveau beoordeeld worden, waarbij niet alleen de ernst van de afwijking, maar ook de functionele beperkingen van het kind in ogenschouw genomen moet worden (Behrman et al., 2000; ICF, 2001).

Ondanks de toegenomen levensverwachting en levenskwaliteit, hebben veel patiënten met een aangeboren hartafwijking te maken met restverschijnselen (Moons, 2004). Met name cyanotische afwijkingen waarbij het zuurstofgehalte in het bloed lager is dan 92% worden geassocieerd met functionele beperkingen. In het “*Nelson textbook of pediatrics*” (Behrman et al., 2000) worden beperkingen op het gebied van groei en ontwikkeling genoemd, ontwikkelingsachterstanden, kortademigheid, gebrek aan eetlust en problemen met het uithoudingsvermogen. Daarnaast worden psychosociale problemen genoemd die voortkomen uit de beperkingen die een patiënt heeft ten opzichte van leeftijdsgenoten. Ten aanzien van de cognitieve ontwikkeling van kinderen met een hartafwijkingen wordt onderscheid gemaakt tussen cyanotische en niet-cyanotische kinderen. De scores op intelligentietests van kinderen met een niet-cyanotische afwijking vallen over het algemeen binnen de normale range, die van cyanotische kinderen liggen significant lager (Aram, Eckelman, Ben-schachar & Levinsohn, 1985; Masi & Brovedani, 1999).

Ouders van een kind met een hartafwijking

Bij de geboorte van een kind met een hartafwijkingen hoeven signalen en symptomen niet direct duidelijk te zijn. Het is goed mogelijk dat pasgeborenen in eerste instantie geen verschijnselen van een hartafwijkingen vertonen en dat het kind gezond verklaard wordt. Met name het sluiten van de ductus botalli (zie persistent ductus atresis hierboven), een normale ontwikkeling bij de zuigeling in de eerste weken na de geboorte, kan hartproblemen aan het licht brengen. Het kind kan ineens verschijnselen vertonen die tevoren nog niet zichtbaar waren. Belangrijke signalen voor artsen zijn: een ruis om het hart, blauwzien, slecht drinken, benauwdheid en transpireren (Behrman et al., 2000). In 80% van de gevallen echter wordt de afwijking direct na de geboorte vastgesteld. Ook komt het tegenwoordig voor dat hartafwijkingen met behulp van echografie al in de zwangerschap aan het licht komen, maar percentages daarover zijn nog niet bekend (Moons, 2004).

Het moment van de diagnose en de eerste fase van de behandeling is voor ouders een zeer ingrijpende periode (Goldberg et al., 1990). Het toekomstbeeld zoals zij zich dat hadden voorgesteld van een leven met een gezond kind, verandert immers drastisch (Lawoko & Soares, 2004). Ouders ervaren een gevoel van verlies, dat tot uiting kan komen in shock, verwarring, boosheid en angst, schuldgevoel, hulpeloosheid, en depressieve gevoelens (Rao, Pradhan & Shah, 2004). De eerste taak waar ouders zich voor gesteld zien wanneer blijkt dat hun kind een hartafwijking heeft is dan ook het verwerken van de gevoelens die voortkomen uit het krijgen van een niet-gezond kind.

Vervolgens worden ouders geconfronteerd met allerlei andere extra taken, waaraan zij zich aan moeten passen. Moos en Tsu (1977) hebben deze zogenaamde “adaptive tasks” gekaderd en maakten hierbij een onderscheid tussen *ziektegerelateerde* en *algemene zorgtaken*.

Ziektegerelateerde zorgtaken zijn taken die direct of indirect voortkomen uit de ziekte van het kind. Zo krijgen veel ouders van een kind met een hartafwijking te horen dat hun kind op jonge leeftijd een of meerdere operaties zal moeten ondergaan en dat het kind onder controle van een kindercardioloog gesteld zal worden. Frequent contact met de medische wereld is hiervan het gevolg. Taken van ouders spitsen zich toe op de begeleiding van het kind zelf als het medische procedures moet ondergaan, en op de communicatie met de medische staf. Ook het organiseren en coördineren van de medische zorg rondom het kind moet tot de ziektegerelateerde taken gerekend worden.

Daarnaast is ook in de thuissituatie vaak een vorm van directe of indirecte medische begeleiding nodig. Hierbij kan gedacht worden aan het toedienen van medicijnen en het in de

gaten houden van de lichamelijke conditie van het kind. Ouders moeten alert blijven op eventuele alarmerende signalen, bijvoorbeeld als een kind vermoeider wordt of blauwer gaat zien. Tevens worden ouders in de thuissituatie geconfronteerd met de indirecte gevolgen van de hartafwijking van het kind, vaak praktische gevolgen in het dagelijks leven. Een bekend probleem bij ouders van een kind met een hartafwijking is bijvoorbeeld de slechte eetlust van het kind, waardoor extra aandacht aan voeding besteed moet worden. Tenslotte is het mogelijk dat een kind fysieke of mentale ontwikkelingsachterstanden oploopt als gevolg van de hartafwijking. Ook hier moeten ouders alert op blijven, zodat eventueel extra hulp of extra faciliteiten ingeschakeld kunnen worden.

Naast de begeleiding die voortkomt uit de directe en indirecte gevolgen van de ziekte, zal het kind echter ook in psychosociaal opzicht begeleid moeten worden. Veel kinderen ervaren problemen die voornamelijk voortkomen uit het gevoel “afwijkend” te zijn ten opzichte van leeftijdgenoten (Behrman et al., 2000; Moons, 2004).

Verder moet het kind ook opgevoed worden, dat wil zeggen voorbereid worden op een zo zelfstandig mogelijk bestaan in de samenleving. Van der Meulen (2004) spreekt in dit kader van een “ongewone, verzwaarde opvoedingssituatie” voor ouders, aangezien kinderen met beperkingen zich door hun ziekte anders ontwikkelen dan kinderen zonder beperkingen (Zijlstra, 1997, in van der Meulen, 2004).

Naast de ziektegerelateerde zorgtaken is er voor de ouder van een kind met een hartafwijking echter ook sprake van *algemene zorgtaken* (Moos & Tsu, 1977). Deze zorgtaken zijn enerzijds gericht op het systeem rondom het hartekind, anderzijds op het individuele welzijn van de ouder.

Ten aanzien van het systeem rondom het hartekind, richten de algemene zorgtaken van ouder zich in de eerste plaats op het gezin, op de verzorging en opvoeding van eventuele andere kinderen en op de relatie met de partner. In de tweede plaats zal zorg gedragen moeten worden voor de communicatie met het systeem rondom het gezin: met familie, vrienden en eventuele anderen die een belangrijke rol spelen.

Tenslotte moeten ouders zorg dragen voor de handhaving van hun persoonlijke emotionele stabiliteit, binnen een situatie die gekenmerkt wordt door extra zorglast ten aanzien van het kind en zijn/haar omgeving en een toekomst die onzeker is.

Ervaren levenskwaliteit van ouders van een kind met een hartafwijking

Vanuit de beschrijving van de extra zorgbelasting van ouders van een kind met een hartafwijking kan dieper worden ingegaan op “Ervaren levenskwaliteit”. Ervaren

levenskwaliteit heeft betrekking op de globale beoordeling van iemands levenstevredenheid, aan de hand van eigen gekozen criteria (Diener et al., 1985). Een centraal kenmerk in het onderzoek naar de kwaliteit van leven is dat mensen een oordeel over hun leven vellen dat is gebaseerd op een vergelijking met een standaard die iedereen voor zichzelf vaststelt.

Onderzoek naar de ervaren levenskwaliteit van ouders van kinderen met een hartafwijking is nauwelijks voorhanden. Evenmin zijn er specifieke theoretische verklaringsmodellen die inzicht verschaffen in processen en factoren die bepalend zijn voor de mate waarin ouders kwaliteit van leven ervaren wanneer ze voor de taak staan om een kind op te voeden met een chronische aandoening. In het algemeen maken studies naar levenskwaliteit bij chronische ziektes gebruik van theoretische modellen die voortkomen uit onderzoek naar psychosociale adaptatie bij mentale en lichamelijke beperkingen (Wallander, Thompson, & Alriksson-Schmidt, 2003).

Ten behoeve van dit onderzoek zullen we nader ingaan op deze theorieën. Ouders die in staat blijken te zijn om een emotioneel evenwicht te behouden ondanks de extra zorglast, kunnen als "goed aangepast" beschouwd worden. Goede aanpassing van ouders komt dus tot uiting in "psychische gezondheid". Psychisch gezonde mensen hebben, volgens de definitie van VN Wereld Gezondheids Organisatie (WHO, 2001): "een subjectieve beleving van welzijn, autonomie en competentie. Zij voelen zich in staat de eigen intellectuele en emotionele mogelijkheden te verwezenlijken. Psychisch ongezonde mensen hebben last van psychische klachten of psychische stoornissen".

Integratie van de zorgbelasting van ouders van een kind met een hartafwijking en de omschrijving van psychische gezondheid stelt ons in staat om de psychologische aanpassing van ouders van een kind met een hartafwijking te definiëren als "the adaptive task of managing upsetting feelings aroused by the illness of the child and preserving a reasonable balance" (Moos & Tsu, 1977).

Aanpassing aan chronische ziekte: een proces van stressverwerking

In de opvattingen over chronische ziekte werd er tot ongeveer de jaren '80 uitgegaan van het zogenaamde "Difference/Deficit-model" (Harper, 1991). Dit hield in dat men veronderstelde dat het hebben van een chronisch ziek kind per definitie zou leiden tot problemen bij ouders. Onderzoek naar de invloed van chronische ziekte op patiënt en ouders was in eerste instantie gericht op de beschrijving van de pathologie, waarbij ervan uit werd gegaan dat er een direct verband bestond tussen de ziekte van het kind en de invloed daarvan op ouders. In de loop der jaren kwam men echter tot het inzicht dat een dergelijke opvatting

geen recht deed aan de werkelijkheid. Er waren namelijk ook gezinnen, waarbij geen sprake was van problematiek (Wallander, Varni, Babani, DeHaan, Thompson-Wilcox & Banis, 1989). Aan- of afwezigheid van psychopathologie alleen kon dus geen maatstaf zijn om aanpassing te meten. Daarnaast begon men in te zien dat aanpassing geen statisch gegeven was, maar een dynamisch proces, dat veranderde per situatie en per levensfase waarin kind en ouders zich bevonden. Tenslotte groeide het bewustzijn dat aanpassing niet unidimensioneel was, maar een wisselwerking tussen verschillende factoren (Harper, 1991). Juist in deze wisselwerking van factoren zou de verklaring liggen voor de verschillen in aanpassing tussen ouders. Kortom, meer en meer werd “aanpassing” bij chronische ziekte gezien als een dynamisch, multidimensioneel proces, waarin het omgaan met stressvolle gebeurtenissen een cruciale rol speelde.

Het disability-stress-coping model

Vanuit de visie dat aanpassing niet een statisch, maar een dynamisch proces is, waarbij er sprake is van verschillende factoren die van invloed zijn op de uiteindelijke aanpassing van ouders, hebben Wallander & Varni (1989) een theoretisch verklaringsmodel ontworpen: het disability-stress-coping model (zie figuur 1). In het model worden twee soorten factoren onderscheiden die van invloed zouden zijn op ouderlijke aanpassing: risicofactoren en beschermende factoren.

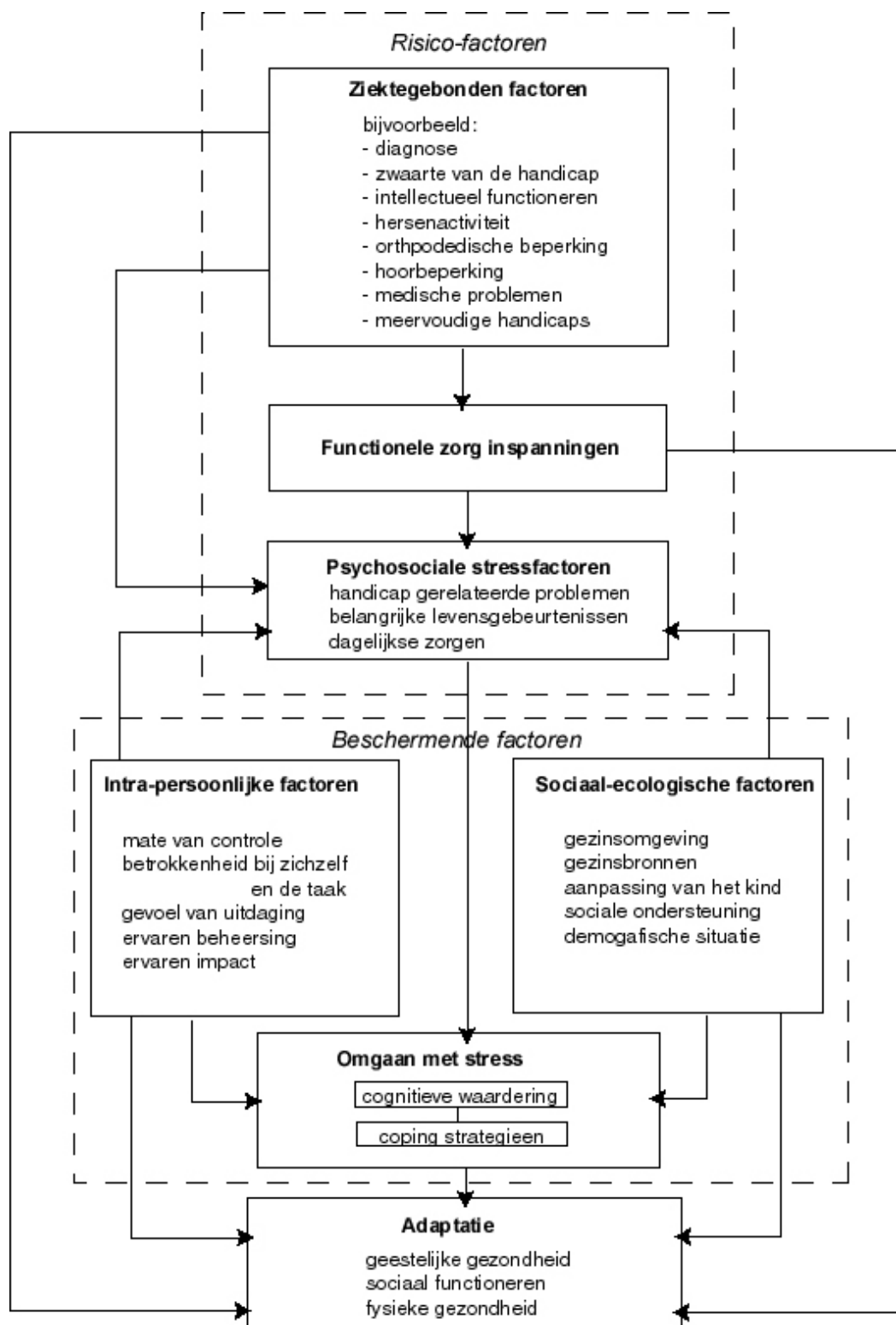
Risicofactoren zijn factoren die de psychosociale aanpassing negatief kunnen beïnvloeden. Als belangrijkste risicofactor en bron van stress wordt de ziekte van het kind gezien. Hierbij gaat het om de diagnose, de ernst van de handicap, complicaties, zichtbaarheid en eventuele mentale beperkingen. Een tweede belangrijke bron van stress komt voort uit de functionele afhankelijkheid van het kind in het dagelijks leven en de zorglast die dat met zich meebrengt voor ouders. Als laatste bron van stress worden de “psychosociale stressoren” genoemd, stressoren die voortkomen uit ingrijpende gebeurtenissen zoals operaties, en andere ingrijpende behandelingen die een chronisch ziek kind moet ondergaan. In dit kader worden dagelijkse beslommeringen genoemd, vaak praktische zaken waar ouders dagelijks mee worden geconfronteerd (het geven van sondevoeding, nachtrustverstoring etc). Ook de stress die voortkomt uit de opvoeding van het kind kan hier worden ondergebracht. Wallander et al. (1989) refereren in deze context aan de term “cognitive appraisal” uit de theorie van Lazarus (1991), waarmee aangegeven wordt dat niet de gebeurtenis zelf de impact ervan bepaalt, maar de betekenis die door het individu aan de gebeurtenis wordt toegekend.

Naast risicofactoren is er sprake van beschermende factoren, factoren die ouders helpen om weerstand te bieden aan de extra moeilijkheden die zij tegenkomen vanwege de ziekte van hun kind. De beschermende factoren worden ingedeeld in drie categorieën: intrapersonlijke, sociaalecologische en stressverwerkingsfactoren. Onder intrapersonlijke factoren worden aspecten als competentie, temperament, motivatie, en probleemoplossend vermogen verstaan. Onder sociaalecologische factoren worden interpersoonlijke kernen begrepen, zoals hulp en steun van omgeving en familie, de mate waarin anderen (gezin, familie, vrienden) zich aanpassen aan de situatie en praktische hulpbronnen zoals inkomen en opleiding. Tenslotte worden onder stressverwerkingsfactoren mechanismen van cognitieve betekenisverlening en coping verstaan. Cognitieve betekenisverlening duidt op het proces waarbij ouders een inschatting maken in hoeverre de draaglast van omstandigheden afgestemd is op hun draagkracht. Wanneer de draaglast de draagkracht overstijgt ontstaat stress. In interactie met stressvolle gebeurtenissen kunnen ouders verschillende strategieën hebben om de balans te herstellen. In grote lijnen zijn er drie soorten copingstrategieën: probleemgerichte coping, hierbij probeert iemand de situatie zodanig te veranderen dat draaglast en draagkracht weer in balans komen; emotiegerichte coping, hierbij poogt iemand de eigen negatieve emotie te verminderen om de balans te herstellen; en het zoeken van sociale ondersteuning. Afhankelijk van de goodness-of-fit tussen eigenschappen van stressoren, bijvoorbeeld de mate waarin controle uitgeoefend kan worden op de situatie, en copingstrategieën, wordt verondersteld dat de wijze van stressverwerking positieve dan wel negatieve aanpassing bewerkstelligt.

Met behulp van het disability-stress-coping model kunnen verschillende verbanden worden onderzocht. In de eerste plaats is het met dit model mogelijk om de directe invloed van risico- en beschermende factoren op de aanpassing van ouders te onderzoeken. Daarnaast kunnen ook indirecte invloeden worden onderzocht. Zo wordt verondersteld dat ziekteparameters niet alleen een direct effect op aanpassing hebben, maar ook indirect inwerken op de dagelijkse zorg en op psychosociale stress. Hetzelfde geldt voor intrapersonlijke en sociaal-ecologische factoren: deze kunnen een direct effect hebben op aanpassing, en een indirect effect op het voorkomen van psychosociale stress en op de copingstijlen.

De interactie tussen risico- en beschermingsfactoren resulteert volgens het disability-stress-coping model ofwel in positieve ofwel in negatieve adaptatie. Hierbij worden drie uitkomst domeinen onderscheiden: fysiek, mentaal en sociaal functioneren.

Het disability-stress-coping model wordt veelvuldig gebruikt als conceptueel kader voor onderzoek naar psychosociale adaptatie en kwaliteit van leven van ouders die een kind hebben met een chronische ziekte (Wallander et al., 2003).



Figuur 1. Model van Wallander

Empirisch onderzoek bij ouders van een kind met een hartafwijking

In dit onderzoek gaat de aandacht uit naar de ervaren levenskwaliteit van ouders van een kind met een hartafwijking. Onderzoek naar deze uitkomst onder ouders van kinderen met een hartafwijking is nauwelijks voorhanden. Om toch een indruk te krijgen van wat bekend is over de kwaliteit van leven en verwante factoren, zullen we in deze paragraaf onderzoek bespreken naar de psychosociale adaptatie én kwaliteit van leven bij ouders van kinderen met een hartafwijking (zie Tabel 1, 2 en 3). Bij de rapportage van de verschillende onderzoeken en de resultaten is getracht de gegevens te ordenen volgens de concepten uit het disability-stress-coping model van Wallander et al.(1989), dat wil zeggen dat de onderzoeksresultaten ingedeeld zijn in adaptatie, risico- en beschermende factoren.

Psychosociale adaptatie en kwaliteit van leven

Davis, Craig, Brown, Bakeman, & Campbell (1998) onderzochten de psychologische aanpassing van moeders van een kind met een hartafwijking. Om aanpassing te meten maakten zij gebruik van de *Brief Symptom Inventory* (= *BSI*, Derogatis & Melisaratos, 1983), een zelfbeoordelingsinstrument dat de aanwezigheid en de intensiteit van **psychopathologische** symptomen meet. Davis et al. (1998) kwamen tot de conclusie dat de mate van psychopathologie van de moeders sterk varieerde: 37,3 % van de moeders behaalden klinisch hoge totaalscores op de *BSI* tegenover 62.7% van de moeders bij wie dat niet het geval was. De onderzoekers trokken hieruit de conclusie dat er bij 37% van de moeders sprake was van slechte aanpassing.

Lawoko & Soares (2002) onderzochten spanning en wanhoop onder ouders van een kind met een hartafwijking. Hartouders werden daarbij vergeleken met ouders van kinderen met een andersoortige afwijking en met ouders van gezonde kinderen. Om aanpassing te meten maakten zij gebruik van de lange versie van de *Brief Symptom Inventory*, de *Symptom Checklist Revised-90* (Derogatis, 1994). De mate van psychopathologie werd vastgesteld met behulp van een *Global Severity Index (GSI)*. Uit dit onderzoek kwam naar voren dat ouders van een kind met een hartafwijking significant hoger scoorden op de *GSI*-schalen dan ouders van een kind met andere afwijkingen ($p < .05$) en dan ouders van gezonde kinderen ($p < .001$). Tevens vertoonden ouders van een hartekind significant hogere scores op het gebied van depressieve gevoelens dan ouders van een kind met andere afwijkingen ($p < .005$) en dan ouders van gezonde kinderen ($p < .001$). Ook lagen ook de scores op het gebied van angst en

op het gebied van somatisering significant hoger bij ouders van een kind met een hartafwijking in vergelijking tot de ouders van de twee andere groepen. (resp. $p < .001$, $p < .005$). Tenslotte had een significante hoeveelheid ouders van hartekinderen depressiescores die lagen boven de klinisch/psychiatrische grens en ook deze scores lagen hoger dan de scores van ouders van kinderen met andere afwijkingen of van ouders met gezonde kinderen (resp. 15%, 9% en 7%).

Tenslotte werd in het onderzoek van Utens, Versluis-Den Bieman, Verhulst, Witsenburg, Bogers & Hess (2000) psychologische aanpassing gemeten met behulp van een vragenlijst waarmee eveneens psychopathologie gemeten werd: de *General Health Questionnaire* (Koeter & Ormel, 1992) In dit onderzoek werd gekeken naar ouders van een kind met een hartafwijking in de periode voorafgaand aan een operatie of catheterisatie. Op grond van de resultaten concludeerden Utens et al. (2000) dat moeders een significant hogere totaalscore behaalden op de GHQ ($p < .05$) en op de schalen voor angst ($p < .05$), slapeloosheid ($p < .05$) en sociaal disfunctioneren ($p < .05$) dan moeders uit de referentiegroep. Voor vaders lagen alleen de scores op sociaal disfunctioneren hoger dan de referentiegroep ($p < .05$).

Goldberg et al. (1989) onderzochten opvoedingsstress van ouders met een kind met een hartafwijking ten opzichte van **de opvoedingsstress** van ouders van gezonde kinderen en ten opzichte van ouders van kinderen met de Taaislijmziekte. Zij maakten hiertoe gebruik van de *Parenting Stress Index* (Abidin, 1986), een instrument dat disfunctionele domeinen in de ouder-kind relatie aantoont. De resultaten van dit onderzoek toonden aan dat ouders van kinderen met een hartafwijking meer stress ervoeren dan ouders van gezonde kinderen ($p < .02$), hetgeen tot uiting kwam in depressieve gevoelens ($p < .02$) en een verlaagd gevoel van competentie ($p < .01$). In vergelijking tot ouders van gezonde kinderen ($M = 204.0$) en tot ouders van kinderen met andere afwijkingen ($M = 225.7$), bleken de ouders van hartekinderen de meeste stress te ervaren ($M = 228.5$). Goldberg et al. (1989) trokken hieruit de conclusie dat de ervaren opvoedingsstress vanwege de ziekte van het kind, het psychologisch welzijn van ouders aantastte en daarmee beschouwd moest worden als een risicofactor in de aanpassing van ouders.

Visconti et al. (2002) deden onderzoek onder ouders van kinderen met een Transpositie van de grote vaten, een reparabele afwijking. Ook in dit onderzoek werd gebruik gemaakt van de *Parenting Stress Index* (Abidin, 1986). In tegenstelling tot Goldberg et al. (1989), werden in dit onderzoek significant lagere scores gevonden op het gebied van ouderlijke stress dan de normgroep (ratio niet bekend).

Tenslotte onderzochten Lawoko & Soares (2003) **de kwaliteit van leven** van ouders van een hartekind, met behulp van de *The Goteborg Quality of Life Scale* (Wiklund, Tibblin & Dimenas, 1990) een vragenlijst die betrekking had op tevredenheid van ouders op 3 domeinen: gezinsfunctioneren, fysiek en psychologisch welzijn. Uit de resultaten van dit onderzoek kwam naar voren dat de kwaliteit van leven van ouders van kinderen met een hartafwijking significant lager lag dan de kwaliteit van leven zoals die door ouders van kinderen met andere afwijkingen beoordeeld werd ($p < .005$).

Concluderend kan men hieruit opmaken dat ouders van kinderen met een verscheidenheid aan hartafwijkingen meer symptomen van psychologische en opvoedingsstress en minder kwaliteit van leven ervoeren, dan ouders van gezonde kinderen. Dit resultaat werd echter niet aangetroffen bij ouders van kinderen met een reparabele hartafwijking.

Risicofactoren

In het model van Wallander et al. (1989) worden drie categorieën risicofactoren onderscheiden: ziektegebonden factoren, functionele zorginspanningen en psychosociale stressoren.

- Ziektegebonden factoren

Ten aanzien van de invloed van de ernst van de ziekte onderzochten Van Horn et al. (2001) de ziektegerelateerde zorgen van moeders van kinderen met een hartafwijking. Hiertoe maakten zij gebruik van semi-gestructureerde interviews waarin tevredenheid, copingstijl, gezinsfunctioneren en ziektegerelateerde zorgen bevraagd werden (Beardslee, 1992). Uit de resultaten kwam naar voren dat er geen correlatie was tussen de mate van bezorgdheid van de moeders en de ernst van het type afwijking, zoals die door cardiologen werd beoordeeld (ratio niet bekend). Ook uit het onderzoek van Davis et al. (1998) naar aanpassing van ouders van kinderen met een hartafwijking kwam naar voren dat de scores van moeders op de *Brief Symptom Inventory* (Derogatis & Melisaratos, 1983) niet significant gecorreleerd waren met de ernst van de ziekte, zoals die op basis van het type hartafwijking door medici werd beoordeeld ($r = .09$ ns). Tenslotte vonden ook Lawoko & Soares in hun onderzoek naar tevredenheid (2003) geen significante bijdragen van het type hartafwijking ($B = -.02$, ns).

Ten aanzien van de impact van de functionele beperkingen van een kind met een hartafwijking op de aanpassing van ouders werd geen onderzoek gevonden.

- Functionele zorginspanningen en psychosociale stressoren

Bij het indelen van onderzoek naar functionele zorginspanningen ontstond een probleem: indicatoren van functionele zorginspanningen leken conceptueel moeilijk te onderscheiden van indicatoren van psychosociale stressfactoren. Zowel op conceptueel als empirisch niveau is niet te onderscheiden of zorgbelasting voortkomt uit normale alledaagse beslommingen of dat ook ziektegebonden factoren hierin meespelen. Om die reden werden de situationele stressfactoren zoals zorglast en dagelijkse beslommingen samengevoegd tot één concept.

Davis et al. (1998) onderzochten cognitieve processen in de aanpassing van moeders. Cognitieve processen werden gemeten met behulp van interviews over ervaren stress vanwege de ziekte van het kind. Vervolgens werden scores toegekend aan de mate waarin bepaalde ziektegerelateerde taken als stressvol ervaren werden. Tevens werd gekeken naar de ervaren stress die voortkwam uit dagelijkse beslommingen. Ook hiervan werd een score gemaakt, zowel naar frequentie als naar de mate waarin deze taken als stressvol ervaren werden. Resultaten van dit onderzoek wezen uit dat zowel de ervaren stress vanwege de ziekte van het kind ($r = -.29, p < .05$) als de stress die voortkwam uit de dagelijkse beslommingen ($r = .31, p < .05$) significant correleerden met de scores op de *Brief Symptom Inventory* (Derogatis & Melisaratos, 1983).

In het onderzoek van Lawoko en Soares (2002) naar spanning en gevoelens van wanhoop, werd de zorgbelasting van ouders als variabele ondergebracht bij de status van het kind. Zorgbelasting werd hierbij uitgedrukt in tijd die aan het kind besteed werd. Hoewel dit aspect door Lawoko en Soares (2002) beoordeeld werd als deel uitmakend van de ziekte van het kind, past dit aspect in termen van het disability-stress-coping model, beter onder het concept psychosociale stressoren. De resultaten van het onderzoek wezen uit, dat de zorgbelasting van de ouders een significante bijdrage leverde aan de verklaring van depressieve gevoelens ($p < .05$) angst ($p < .05$), somatisering ($p < .01$) en gevoelens van wanhoop ($p < .05$). Ook uit het tweede onderzoek van Lawoko en Soares (2003) waarbij de kwaliteit van leven van ouders van een hartekind centraal stond, kwam naar voren dat de zorgbelasting van de ouders hieraan een weliswaar significante maar kleine bijdrage leverde ($\beta = -.07, p < .05$).

Beschermende factoren

Op het gebied van beschermende factoren onderscheiden Wallander en collega's (1989): intrapersoonlijke factoren, sociaal-ecologische factoren en omgaan met stress (cognitieve waardering en copingstrategieën).

- Intrapersoonlijke factoren

Ten aanzien van intrapersoonlijke factoren onder ouders van kinderen met een hartafwijking kan het onderzoek van Davis et al. (1998) genoemd worden. Davis et al. (1998) bestudeerden de invloed van “Efficiëntie in de vervulling van de ziekte-taken” en “Health locus of Control” op de aanpassing van moeders. Health locus of control was de mate waarin men aspecten van gezondheid al dan niet toeschreef aan eigen gedragingen of inspanningen. Efficiëntie werd gemeten op een schaal waarbij moeders gevraagd werd hoe zeker zij waren van zichzelf in het omgaan met bepaalde ziektegerelateerde taken. Health locus of control werd gemeten met een *Multidimensional Health Locus of control scale* (Wallston, Wallston & Devellis, 1987). Uit de resultaten van dit onderzoek kwam naar voren dat noch “Efficiëntie” ($r = .27$, *ns*), noch “Health locus of control” (Internal: $r = .11$, *ns*, Chance: $r = -.08$, *ns*) geassocieerd waren met de aanpassing van moeders.

- Sociaal-ecologische factoren

Ten aanzien van de tweede categorie beschermende factoren, de sociaal-ecologische factoren, is op het gebied van hartafwijkingen het onderzoek van Visconti et al. (2002) van belang. Zij onderzochten ouders van 153 kinderen met een Transpositie van de Grote Aderen op 1-en op 4-jarige leeftijd. Met behulp van de *Social Support Network Inventory* (Flaherty, Gaviria & Pathak, 1983) onderzochten zij onder meer de relatie tussen sociale ondersteuning en opvoedingsstress. Opvoedingsstress werd hierbij gemeten met de *Parenting Stress Index* (Abidin, 1985). Uit de resultaten kwam naar voren, dat hoge scores op de perceptie van stress (ouder en kinddomein) significant negatief correleerden met sociale ondersteuning (ratio niet bekend). Hieruit volgde de conclusie dat sociale ondersteuning voor ouders van kinderen met een hartafwijking een rol speelde in de aanpassing van deze ouders.

Ook Lawoko en Soares (2003) bestudeerden sociale ondersteuning in hun onderzoek naar de kwaliteit van leven. Zij maakten hiertoe gebruik van de *Schedule For Social Interaction* (Unden & Orth-Gomer, 1989). Uit de resultaten van dit onderzoek kwam naar voren dat de scores op de sociale integratieschaal (als onderdeel van sociale ondersteuning)

een significant positieve bijdrage leverden aan de tevredenheid van ouders ($\beta = 0.18, p < .001$).

- Coping

Tenslotte is onder ouders van chronisch zieke kinderen onderzoek gedaan naar manieren van stressverwerking (= copingstrategieën) Twee onderzoeken op het gebied van hartafwijkingen kunnen in dit kader genoemd worden. Davis et al.(1998) onderzochten copingstrategieën onder ouders van kinderen met een hartafwijking. “Coping” werd daarbij geoperationaliseerd met behulp van de *Ways of Coping Questionnaire* (Folkman & Lazarus, 1980). Uit de resultaten van dit onderzoek kwam naar voren dat de aanpassing van moeders significant gecorreleerd was met de copingstrategie: een passieve copingstijl ging samen met lagere scores op aanpassing ($r = -.44, p < .01$). Uit de regressieanalyse kwam naar voren dat een passieve copingstijl een significant negatieve bijdrage leverde aan de variantie van de *Brief Symptom Inventory*-scores van moeders ($\beta = -.42, p < .01$). Het tweede onderzoek dat in dit kader beschreven wordt is van Nederlandse oorsprong, en werd gedaan door onderzoekers van het Erasmus Medisch Centrum in Rotterdam (Utens, Versluis-Den Bieman, Verhulst, Witsenburg, Bogers & Hess, 2000). In dit onderzoek werd gekeken naar copingstrategieën en stress onder ouders van kinderen met een hartafwijking, in de periode voorafgaand aan een operatie of catheterisatie van het kind. Om copingstijlen te meten, werd gebruik gemaakt van de *Utrechtse Coping Lijst* (Schreurs, Willige, Brosschot, Tellegen & Graus, 1993). Op het gebied van copingstijlen werden onder moeders significant lagere scores gevonden bij actief probleemoplossend gedrag ($p < .05$), en significant hogere scores gevonden bij een passief reactiepatroon ($p < .05$) in vergelijking met een referentiegroep. Bij zowel vaders als moeder werden significant lagere scores gevonden bij de expressie van emoties ($p < .05$). Utens et al. (2000) concludeerden op basis van deze gegevens dat het gedrag van ouders van kinderen met een hartafwijking voor een operatie gekenmerkt werd door meer passieve vormen van probleemoplossende coping, hetgeen volgens de onderzoekers moest worden beschouwd als een minder adequate vorm van coping.

Tabel 1. Overzicht studies binnen groepen ouders van kinderen met een hartafwijking

Studies binnen groep(en)

Auteur	Onafhankelijke variabele	Instrument bij onafhankelijke var.	Afhankelijke variabele	Instrument bij afhankelijke var.
Davis et al.	Daily hassles	Daily hassles scale	Psychological distress: - <i>somatization</i> - <i>obsessive compulsive</i> - <i>interpersonal sensitivity</i> - <i>depression</i> - <i>anxiety</i> - <i>hostility</i> - <i>phobic anxiety</i> - <i>paranoïde ideation</i> - <i>psychotism</i>	Brief Symptom Inventory
	Illness tasks: - <i>dealing with medical problems</i> - <i>maintaining child's emotional stability and wellbeing</i> - <i>maintaining own emotional stability and wellbeing</i> - <i>dealing and being prepared for an uncertain future</i>	Interview op basis van Moos & Tsu (1977)		
	Handling tasks: - <i>dealing with medical problems</i> - <i>maintaining child's emotional stability and wellbeing</i> - <i>maintaining own emotional stability and wellbeing</i> - <i>dealing and being prepared for an uncertain future</i>	Interview op basis van Moos & Tsu (1977)		
	Health locus of control: - <i>internal</i> - <i>chance</i>	Locus of control scale		
	Ways of coping: - <i>emotion focused</i> - <i>avoidance</i> - <i>wishful thinking</i> - <i>self blaming</i> - <i>problem focused</i> - <i>cognitive restructuring</i> - <i>seeking information</i> - <i>social support</i>	Ways of coping questionnaire		
	Family functioning: - <i>supportive</i> - <i>conflicted</i> - <i>controlling</i>	Family environment scale		
	Illness: - <i>type</i> - <i>severity</i>	Based on clinical diagnosis of the structure of congenital heart defects		
Demographics - <i>age</i> - <i>education</i>	Questionnaire			
Van Horn et al.	Ernst van de hartafwijking - <i>type hartafwijking</i> - <i>aantal ziekenhuisopnames</i> - <i>aantal hartoperaties</i> - <i>aantal catheterisaties</i>	Klinische diagnose	- <i>spanning</i> - <i>angst</i> - <i>depressie</i>	Semi-gestructureerd interview over de emotionele staat
	Ziektegerelateerde zorgen	Semi-open interview		
Visconti et al.	Social support: - <i>availability</i> - <i>reciprocity</i> - <i>practical support</i> - <i>emotional support</i> - <i>event-related support</i>	Social support network inventory	Child-domain: - <i>distractibility / hyperactivity</i> - <i>adaptability to change</i> - <i>demandingness of care</i> - <i>reinforces parent</i> - <i>mood</i> - <i>acceptability</i>	Parenting stress index (PSI)
			Parent-domain: - <i>competence</i> - <i>social isolation</i> - <i>attachment</i> - <i>attachment</i> - <i>health</i> - <i>role restriction</i> - <i>depression</i> - <i>spouse</i>	
Utens et al.	Ways of coping: - <i>active solving</i> - <i>palliative reaction</i> - <i>avoiding / waiting</i> - <i>seeking social support</i> - <i>passive reaction</i> - <i>expression of emotions</i> - <i>positive cognitions</i>	Utrecht coping list	Somatic symptoms	General health questionnaire
			Anxiety and sleeplessness	
			Social dysfunctioning	
			Serious depression	

Tabel 2. Overzicht studies tussen verschillende groepen ouders

Studies tussen groepen

Auteur	Onafhankelijke variabele	Onderling vergeleken groepen	Afhankelijke variabele	Instrument bij afhankelijke var.
Pelchat et al.	Verschillen/overeenkomsten	Ouders van - kind met down syndroom - kind met schisis - kind met een hartafwijking	Stress from Child domain - <i>acceptability</i>	Parenting Stress Index
			Stress from parent domain - <i>competence</i> - <i>role restrictions</i>	
			Perceived stress - <i>threat</i> - <i>challenge</i> - <i>control by self</i> - <i>control by others</i> - <i>uncontrollability</i> - <i>stressfulness</i>	Stress Appraisal Measure
			Psychological distress - <i>anxiety</i> - <i>anger</i> - <i>depression</i> - <i>cognitive disturbance</i>	Psychological Distress Index
Goldberg et al.	Verschillen/overeenkomsten	Ouders van - kind met taaislijmziekte - kind met hartafwijking - gezond kind	Stress from Child domain - <i>demandingness</i> - <i>acceptance</i> - <i>mood</i> - <i>distractability/hyperactivity</i> - <i>reinforcement of the parent</i>	Parenting Stress Index
			Stress from parent domain - <i>sense of competence</i> - <i>attachment</i> - <i>rolerestrictions</i> - <i>relationship</i> - <i>health</i> - <i>social isolation</i>	
			Stress from life events	

Tabel 3. Overzicht studies zowel binnen als tussen groepen ouders

Studies tussen groepen en binnen groepen

Auteur	Onafhankelijke variabele	Onderling vergeleken groepen / Instrument bij onafhankelijke var.	Afhankelijke variabele	Instrument bij afhankelijke var.
Lawoko <i>tussen</i> & Soares (2002)	verschillen/overeenkomsten tussen	ouders van - kind met andere afwijking - kind met hartafwijking - gezond kind	Distress - <i>depression</i> - <i>anxiety</i> - <i>somatization</i>	SCL-90-R
			Hopelessness	Hopelessness Scale
Lawoko <i>binnen</i> & Soares (2002)	Kindvariabelen - <i>type hartafwijking</i> - <i>hoeveelheid afwijkingen</i> - <i>hoeveelheid operaties</i> - <i>andere ziektes</i> - <i>zorgbelasting</i>	Vragenlijst (zelf ontwikkeld)	Distress - <i>depression</i> - <i>anxiety</i> - <i>somatization</i>	SCL-90-R
	Oudervariabelen - <i>demografische gegevens</i> - <i>financiële gegevens</i> - <i>arbeidsgegevens</i>		Hopelessness	Hopelessness Scale
Lawoko <i>tussen</i> & Soares (2003)	verschillen/overeenkomsten	Ouders van - kind met andere afwijking - kind met hartafwijking - gezond kind	Satisfaction with social situation Satisfaction with physical state Satisfaction with the emotional state	The Göteborg Quality of life scale
Lawoko <i>binnen</i> & Soares (2003)	Distress - <i>depression</i> - <i>anxiety</i> - <i>somatization</i>	SCL-90-R	Satisfaction with social situation Satisfaction with physical state Satisfaction with the emotional state	The Göteborg Quality of life scale
	Hopelessness	Hopelessness Scale		
	Social support - <i>Social Integration</i> - <i>Social Attachment</i>	Schedule for Social Interaction		
	Kindvariabelen - <i>type hartdefect</i> - <i>hoeveelheid hartafwijkingen</i> - <i>hoeveelheid operaties</i> - <i>andere ziektes</i> - <i>zorgbelasting</i>	Vragenlijst (zelf ontwikkeld)		

Conclusie

Samenvattend kan gesteld worden dat psychosociale adaptatie van ouders van een kind met een hartafwijking in bestaand onderzoek geoperationaliseerd is als: de aan- of afwezigheid van psychopathologie, de aan- of afwezigheid van opvoedingsstress of als de beoordeling van kwaliteit van leven. Uit de onderzoeken kwam naar voren dat er sprake was van meer problemen op het gebied van psychosociale adaptatie bij ouders van kinderen met een hartafwijking dan bij ouders uit referentiegroepen, behalve wanneer het kind een herstelbare hartafwijking had.

Op het gebied van de ziektegerelateerde factoren bleek de ernst van de afwijking zoals die door medici (op basis van het type hartafwijking) was vastgesteld geen invloed uit te oefenen op de aanpassing van ouders. Naar de impact van de functionele beperkingen op ouders als gevolg van de hartafwijkingen van hun kind werd geen onderzoek gevonden. Het door de WHO (2001) aangebrachte onderscheid tussen structuur en functie is in de huidige onderzoeken niet gehanteerd.

Empirische indicatoren bleken lastig in te delen naar categorieën van functionele zorginspanningen of psychosociale stressoren. Bij de beschrijving van de onderzoeken is er daarom voor gekozen onderzoek naar situationele stressfactoren onder te brengen in één concept. Uit onderzoek kwam naar voren dat situationele stress een negatieve impact had op ouderlijke adaptatie.

Ten slotte kwam uit onderzoek op het gebied van beschermende factoren naar voren dat sociaal-ecologische factoren en copingstrategieën de aanpassing van ouders positief beïnvloedden. Intrapersoonlijke factoren zoals efficiëntie en locus of control daarentegen leken geen samenhang te vertonen met ouderlijke psychosociale adaptatie.

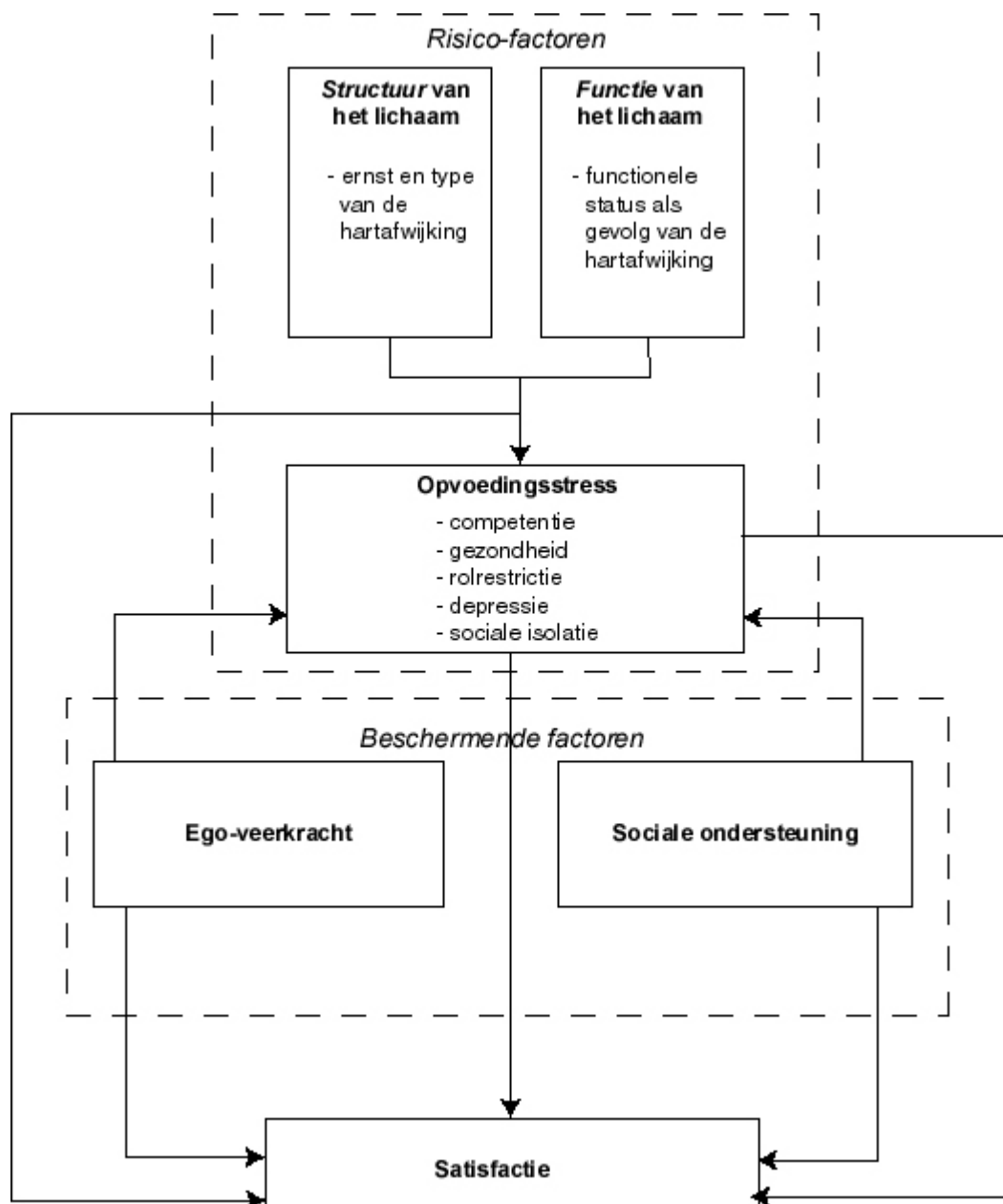
Conceptueel model en vraagstelling

In dit onderzoek staat de vraag centraal hoe ouders van een kind met een hartafwijking de kwaliteit van hun leven ervaren. Figuur 2 laat zien vanuit welk conceptueel model deze onderzoeksvraag zal worden bestudeerd. In deze paragraaf zal uitgelegd worden hoe dit model op basis van het voorgaande tot stand is gekomen. Aansluitend worden de subvragen en hypothesen gespecificeerd.

Uit theorieën over ouderlijke aanpassing bij chronisch zieke kinderen, kwam naar voren dat de psychosociale adaptatie van ouders door zowel risicofactoren als beschermende factoren wordt verklaard. Wallander en collega's (1989) hebben de risicofactoren gedefinieerd in termen van ziekte parameters, functionele belasting en psychosociale

stressoren. Wanneer deze concepten nader beschouwd worden, valt in de eerste plaats op dat er in het model geen onderscheid is gemaakt tussen structurele en functionele kenmerken van ziektes of aandoeningen zoals de VN Wereld Gezondheids Organisatie heeft gedefinieerd (WHO, 2001). In de tweede plaats valt op dat de factoren functionele stressbelasting en psychosociale stressoren nauwelijks van elkaar te onderscheiden zijn op zowel theoretisch als empirisch niveau. Aan de hand van deze kanttekeningen, worden de risicofactoren in dit onderzoek te opnieuw geconceptualiseerd. Allereerst wordt een onderscheid aangebracht tussen de structurele en functionele kenmerken van de hartafwijking. Daarnaast worden functionele belasting en psychosociale stressoren samengevoegd tot één concept: ervaren opvoedingsbelasting.

Wat betreft de beschermende factoren is ervoor gekozen om “coping” niet te onderzoeken, aangezien er ook in Nederland al tamelijk veel copingonderzoek heeft plaatsgevonden. Onderzoek op het gebied van intrapersonlijke factoren daarentegen is schaars en heeft tot nu toe geen resultaten opgeleverd terwijl men dit op basis van persoonlijkheidstheorieën (Block, 2002) zou verwachten. Zo stelt Block bijvoorbeeld dat sommige mensen de typische eigenschap bezitten om tegenslagen het hoofd te bieden terwijl anderen dit niet hebben. Volgens zijn visie, heeft dit te maken met de eigenschap ‘ego-veerkracht’. Om die reden is ervoor gekozen om in dit onderzoek dit concept op te nemen. Naast deze intrapersonlijke factor werd als sociaal-ecologische factor sociale ondersteuning opgenomen.



Figuur 2. Conceptueel model

Onderzoeksvraag en hypotheses

De centrale vraag hoe ouders van kinderen met een hartafwijking de kwaliteit van hun leven ervaren kan nu nader gespecificeerd worden in onderstaande subvragen met bijbehorende verwachtingen:

1. *Hoe ervaren ouders van kinderen met een hartafwijking de kwaliteit van hun leven in vergelijking met ouders van kinderen zonder aandoeningen?*

Op basis van empirisch onderzoek (Lawoko & Soares, 2003) verwachten we dat ouders van kinderen met een hartafwijking minder tevreden zijn over hun leven dan andere ouders.

2. *Hoe ervaren ouders de opvoeding van een kind met een hartafwijking in vergelijking met ouders van kinderen zonder aandoening?*

Op grond van theoretische overwegingen (van de Meulen, 2004) en onderzoeksresultaten (Goldberg et al., 1990) wordt verondersteld dat ouders meer stress ervaren bij de opvoeding van een kind met een hartafwijking.

3. *Is er een relatie tussen structurele en functionele eigenschappen van de hartafwijking en ervaren stress in de opvoeding?*

Op grond van theoretische overwegingen (Wallander et al., 1989; WHO, 2001) wordt verwacht dat de ernst van de afwijking geen invloed heeft op de opvoedingsstress maar de functionele beperkingen wel.

4. *Is er een relatie tussen de beschermende factoren en ervaren stress in de opvoeding?*

Op grond van empirisch onderzoek (Visconti et al., 2002) en op grond van theoretische overwegingen (Block, 2002; Wallander et al., 1989) zullen zowel sociale ondersteuning als egoveerkracht bijdragen aan de vermindering van stress bij ouders.

5. *Welke factoren verklaren de meeste variantie in de ervaren opvoedingsstress?*

Op grond van de onder hypothese 3 en 4 genoemde overwegingen zal opvoedingsstress verklaard kunnen worden door functionele beperkingen, door egoveerkracht en door sociale ondersteuning. Onderzocht zal worden welke variabelen de meeste variantie verklaren.

6. *Is er een relatie tussen risicofactoren en levenstevredenheid?*

Op grond van empirisch onderzoek wordt verwacht dat de ernst van de afwijking geen directe invloed heeft op de tevredenheid van ouders (Lawoko & Soares, 2003). Op grond van theoretische overwegingen zullen functionele beperkingen de tevredenheid van ouders negatief beïnvloeden (Wallander et al., 1989). Op grond van empirische en theoretische

overwegingen zal ervaren stress een negatieve bijdrage leveren aan de tevredenheid van ouders (Lawoko & Soares, 2003; Wallander et al., 1989).

7. *Is er een relatie tussen beschermende factoren en levenstevredenheid?*

Op grond van theoretische en empirische overwegingen (Lawoko & Soares, 2002), zal sociale ondersteuning positief bijdragen aan de tevredenheid van ouders. Op grond van theoretische overwegingen (Block, 2002; Wallander et al., 1989) zal egoveerkracht een positieve bijdrage leveren aan de tevredenheid van ouders.

8. *Welke factoren verklaren de meeste variantie in levenstevredenheid?*

Op grond de overwegingen van hypothese 6 en 7 zal de levenstevredenheid van ouders negatief beïnvloed worden door functionele beperkingen en ervaren stress. Egoveerkracht en sociale ondersteuning zullen een positieve bijdrage leveren. Onderzocht zal worden welke variabelen de meeste variantie verklaren.

Methode

Onderzoeksgroep

Zevenendertig ouders (33 moeders en 4 vaders) van kinderen met een aangeboren hartafwijking werkten mee aan dit onderzoek. De leeftijd van de ouders varieerde van 27 tot 50 jaar ($M = 36,4$ jaar, $SD = 5,7$); 97.3% van de ouders was gehuwd of samenwonend; 0.7% van de ouders was gescheiden. Alle ouders waren de biologische ouders van de kinderen. De spreiding van hoogst genoten opleidingsniveau van ouders was als volgt: Lhno/Lbo 2,8%, Mavo/Mbo 50%, Havo/Hbo 36,1%, Vwo/Wo 11,1 %. De ouders kwamen uit alle delen van Nederland, twee ouders waren van Belgische afkomst. De leeftijd van de hartekinderen varieerde van 0 tot 12 jaar ($M = 5,5$ jaar, $SD = 3,1$).

Procedure

Op een themadag van de Patiëntenvereniging Aangeboren Hartafwijkingen (11 juni 2005, in het "Land van Ooit") voor ouders van kinderen met een aangeboren hartafwijking werd ouders gevraagd om mee te werken aan dit onderzoek. Eenendertig ouders verklaarden zich vrijwillig bereid om mee te werken. Daarnaast werd op de MSN-site van ouders van hartekinderen een oproep gedaan om mee te werken aan het onderzoek. Hierop reageerden vijftien ouders. Aan al deze ouders werd een vragenlijst opgestuurd, die zij, met behulp van een retourenveloppe, moesten terugzenden. Van de 46 ouders die benaderd werden, stuurden 36 ouders de vragenlijst daadwerkelijk terug. Een ouder gaf aan de vragenlijst in een persoonlijk contact te willen toelichten. Van de negen ouders die de vragenlijst niet retourneerden was niet bekend om welke reden zij dat niet deden. Ook is, in verband met de anonimiteit, niet bekend welke ouders wel of niet meewerkten.

Onderzoeksinstrumenten

Initiële diagnose en functionele beperkingen als gevolg van een hartafwijking. De initiële diagnose werd onderzocht met behulp van een open vraag. Vervolgens werden de diagnoses door een kindercardioloog beoordeeld en ingedeeld naar ernst. Hiertoe werd gebruik gemaakt van de classificatie van Task Force 1 van de 32^e Bethesda conferentie, een classificatie die door cardiologen vaak wordt gehanteerd (Warnes, 2001). De diagnoses werden ingedeeld in Mild, Moderate of Complex, hetgeen een toename in ernst impliceerde. 2,9% van de hartafwijkingen van de kinderen in dit onderzoek werd beoordeeld als Mild,

37,1% van de afwijkingen van de kinderen als Moderate, en 60% van de afwijkingen van de kinderen als Complex.

Vervolgens werd naar *de functionele beperkingen* van het kind gevraagd. Gezien het feit dat ook jonge kinderen deel uitmaakten van dit onderzoek, was het niet goed mogelijk om de gebruikelijke NYHA classificatie (classificatie volgens de New York Heart Association) te gebruiken voor dit onderzoek en moest een instrument worden geconstrueerd. Het principe van de NYHA classificatie is echter wel overgenomen, namelijk een glijdende schaal van "afwezigheid van functionele beperkingen" tot "aanwezigheid van veel functionele beperkingen". Het instrument is opgesteld met behulp van een overzicht van mogelijke functionele beperkingen bij kinderen met een aangeboren hartafwijking zoals dat gegeven wordt in het "*Nelson textbook of Pediatrics* (Behrman, Kliegman, & Jenson, 2000). Het in dit onderzoek gebruikte instrument bevatte 10 mogelijke functionele beperkingen van het kind met de hartafwijking die dichotoom gescoord moesten worden (zie tabel 4). Het aantal functionele beperkingen van het kind werd verwerkt tot een somscore, waarbij een score van 0 aangaf dat er geen functionele beperkingen aanwezig waren en een score van 10 een maximale hoeveelheid functionele beperkingen aangaf. De minimumscore van de kinderen uit de onderzoeksgroep was 0, de maximumscore was 9. Het gemiddeld aantal functionele beperkingen was 4,22 (*SD* 2,45).

Tabel 4. Lijst met mogelijke functionele beperkingen van het kind

Lijst met functionele beperkingen

Wilt u bij de onderstaande lijst aangeven welke gevolgen de hartafwijking voor uw kind heeft?

- Heeft uw kind blauwe lippen in rust?
- Krijgt uw kind blauwe lippen bij inspanning?
- Is uw kind sneller moe dan een kind zonder hartafwijking?
- Is uw kind sneller benauwd dan een kind zonder hartafwijking?
- Slaapt uw kind meer dan een kind zonder hartafwijking?
- Eet uw kind slechter dan een kind zonder hartafwijking?
- Ontwikkelt uw kind zich lichamelijk minder snel dan een kind zonder hartafwijking?
- Ontwikkelt uw kind zich geestelijk minder snel dan een kind zonder hartafwijking?
- Moet uw kind medicijnen gebruiken?
- Zijn er andere gevolgen van de hartafwijking voor uw kind?

Opvoedingsstress. Om te bepalen in welke mate ouders stress ervoeren bij de opvoeding van een hartekind, is gebruik gemaakt van het ouderdomein van de *Nijmeegse Ouderlijke Stress Index (NOSI)* (De Brock et al., 1992; Gerris et al., 1993). Dit meetinstrument is een adaptatie van de *Parenting Stress Index* (Abidin, 1983). Met behulp van de NOSI werd gemeten in welke mate de ouder zich niet berekend voelde op de opvoedingstaak en zich daarin inadequaats of gespannen voelde. In dit onderzoek is gebruik gemaakt van de schalen: Gezondheid (6 items, "sinds ik kinderen heb, ben ik vlugger moe dan voorheen", Cronbach's alpha .87), Rolrestrictie (7 items, "ik heb vaak het gevoel dat de wensen/behoefte van mijn kind mij beheersen", Cronbach's alpha .86), Depressie (12 items, "er zijn nogal wat dingen in mijn leven die me dwarszitten", Cronbach's alpha .86), Competentie (13 items, "ik heb vaak het gevoel dat ik de dingen niet zo goed aan kan", Cronbach's alpha .78) en Sociale Isolatie (6 items, "ik heb het gevoel dat mensen van mijn leeftijd mijn gezelschap niet erg op prijs stellen", Cronbach's alpha .78). Vanwege de lage betrouwbaarheid van de schaal waarop Hechting werd gemeten (Cronbach's Alpha .49), is deze schaal verwijderd uit het onderzoek.

Ouders konden per item scoren van 1 = oneens tot 4 = eens. Met het oog op de vergelijkbaarheid van de gegevens ten opzichte van de normgroep, werden de scores getransformeerd van een vierpuntsschaal naar een zespuntsschaal. Per schaal werd het gemiddelde van de somscores berekend. (Gezondheid: $M = 15.76$, $SD = 7.92$, Rolrestrictie: $M = 19.91$, $SD = 7.0$, Depressie: $M = 22.93$, $SD = 10.76$, Competentie: $M = 19.69$, $SD = 9.47$, Sociale Isolatie: $M = 12$, $SD = 6.24$). De betrouwbaarheid van dit meetinstrument is door Abidin (1983) vastgesteld op .95. Dit komt overeen met Cronbach's alpha zoals die berekend werd in dit onderzoek.

Sociale ondersteuning. Om sociale ondersteuning te meten werd gebruik gemaakt van de bewerking van de GVO *Vragenlijst naar Sociale Ondersteuning* (Gerris, Houtmans, Kwaaitaal-Roosen, Schipper, Vermulst, & Janssens (1998). Met behulp van deze schaal werd onderzocht in welke mate de ouder aangaf ondersteuning te ontvangen of te kunnen mobiliseren bij problemen zowel op het persoonlijke vlak als op het vlak van opvoeding en gezin. De schaal bestond uit 15 items, gerangschikt volgens een vijfpunts Likertschaal ("er zijn personen bij wie ik me totaal geborgen en veilig voel"). De antwoordmogelijkheden varieerden van "klopt niet" tot "klopt wel". Na transformatie van een vijf- naar een zevenpuntsschaal werd een gemiddelde score berekend: $M = 5.67$, $SD = 1.06$. Cronbach's Alpha was .93.

Egoveerkracht. Van de persoonlijke eigenschappen bij de ouders is gekeken naar psychologische weerbaarheid, gemeten met behulp van een reductie van de 100 item *California Adult Q-set* (CAQ) van Block (1962) naar ego-resiliency. Met behulp van deze schaal werd het vermogen gemeten om flexibel om te gaan met de steeds veranderende eisen van het leven en om weerstand te bieden aan negatieve ervaringen (Block & Block, 1980). Dit onderdeel van de vragenlijst bevatte 14 uitspraken ("als ik ergens van schrik, vind ik snel mijn evenwicht terug"), waarbij de respondent aan moest geven of deze juist wel (= 1) of juist niet (= 5) van toepassing waren op zijn/haar persoonlijkheid. Na transformatie van een vijf naar de oorspronkelijke zevenpuntsschaal, werd een gemiddelde score berekend: $M = 4.84$, $SD = .88$. Cronbach's alpha was .81.

Levenssatisfactie. De subjectieve levenstevredenheid van ouders werd onderzocht met behulp van de *Satisfaction-With-Life-Scale* (Diener et al., 1985). De SWLS is een zelfbeoordelingvragenlijst die bestaat uit 5 stellingen, bijvoorbeeld: "Over het algemeen komt mijn leven dicht bij mijn ideaal", "De omstandigheden van mijn leven zijn voortreffelijk". Antwoorden werden gegeven op een vijfpunts Likertschaal, die varieerden van 1 = klopt niet tot en met 5 = klopt wel. Met het oog op de vergelijkbaarheid van de gegevens ten opzichte van een normgroep, werden de gegevens getransformeerd van een vijfpuntsschaal naar een zevenpuntsschaal. Vervolgens werd het gemiddelde van de somscores score berekend: $M = 21.6$, $SD = 6.67$. De betrouwbaarheid van dit instrument is onderzocht door Pavot, Diener, Colvin & Sandvic (1999) Cronbach's alpha werd vastgesteld op .87. In dit onderzoek werd een alpha gevonden van .89.

Analysestrategie

In eerste instantie werden associaties tussen de ernst van de afwijking, de functionele beperkingen, opvoedingsstress, sociale ondersteuning, egoveerkracht en levenstevredenheid geanalyseerd met behulp van Pearson correlaties. Vervolgens werden de gemiddelde somscores op het gebied van levenstevredenheid en opvoedingsstress vergeleken met normgroep-gegevens door middel van t-toetsen. Daarna werden twee multiple regressieanalyses uitgevoerd. In de eerste regressieanalyse werd in twee stappen gekeken door welke variabelen opvoedingsstress verklaard kon worden. In de eerste stap werden risicofactoren ingevoerd, in de twee stap beschermende factoren. Om tevredenheid te onderzoeken werd een tweede regressieanalyse uitgevoerd, die was opgebouwd uit drie stappen: in de eerste stap werden de ernst van de ziekte en de functionele beperkingen

ingevoerd, in de tweede stap opvoedingsstress en in de derde stap de beide beschermende factoren egoveerkracht en sociale ondersteuning.

Resultaten

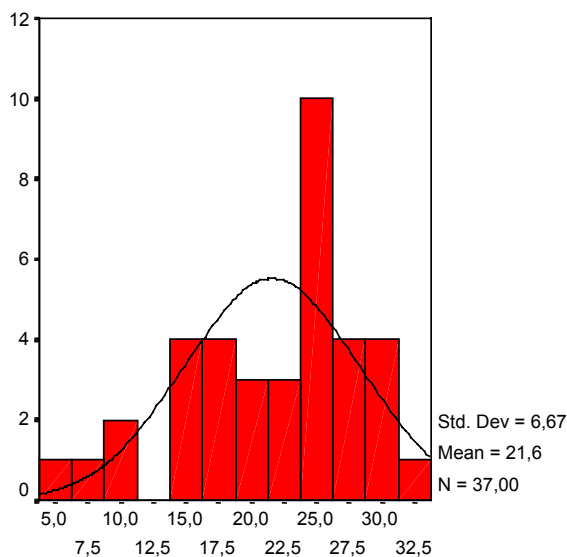
Alvorens de hypothesen te onderzoeken, werden eerst de correlaties tussen de variabelen bestudeerd (zie Tabel 5). Tevredenheid bleek significant negatief te correleren met opvoedingsstress. Een positief verband werd gevonden tussen tevredenheid, sociale ondersteuning en egoveerkracht. De correlaties met de ernst van de afwijking en de functionele beperkingen en tevredenheid waren niet significant.

Tabel 5. Correlaties van de in het onderzoek betrokken variabelen ($N=37$).

Variabelen	1.	2.	3.	4.	5.	6.
1. Tevredenheid	--	.37*	.62**	-.59**	-.07	.14
2. Sociale ondersteuning		--	.48**	-.40*	-.15	-.02
3. Egoveerkracht			--	-.32+	-.01	.12
4. Opvoedingsstress				--	.45**	.02
5. Functionele beperkingen					--	.37*
6. Ernst						--

Noot: +: $p < .10$, *: $p < .05$, **: $p < .01$

In de eerste hypothese werd gesteld dat de levenstevredenheid van ouders met een kind met een hartafwijkingen lager zou liggen dan het niveau van levenstevredenheid zoals dat voortkwam uit normgroepgegevens. De resultaten van dit onderzoek (zie Figuur 3) toonden aan dat de gemiddelde score op tevredenheid van de ouders van een hartekind lag op het niveau van 21.6 ($SD = 6,67$). Vergelijking van deze resultaten met de resultaten die voortkwamen uit Nederlandse normgroepgegevens ($M = 25.1$, $SD = 6.7$) van gehuwde mensen, leverde een significante t-waarde op ($t = -2.6$, $p < .05$). Het gemiddelde niveau van tevredenheid van de ouders van kinderen met een hartafwijking lag significant lager dan het niveau van de normgroep.



Figuur 3. Tevredenheid

Om de tweede hypothese te beantwoorden is de opvoedingsstress nader geanalyseerd. Volgens deze hypothese zouden ouders meer stress ervaren bij de opvoeding van een kind met een hartafwijking dan ouders van gezonde kinderen. De somscores zoals die voorkwamen uit de gegevens van de respondenten werden hiertoe vergeleken met de normgegevens van de NOSI, gebaseerd op ouders van gezonde kinderen (zie Tabel 6).

Uit de resultaten kwam naar voren dat ouders van een kind met een hartafwijking op de globale totaal scores significant meer opvoedingsstress ondervonden dan ouders van gezonde kinderen ($t = 3.49, p = 0$). Uitsplitsing naar de verschillende ouderdomeinen toonde aan dat deze stress voornamelijk bepaald werd door de domeinen “Rolrestrictie” ($t = 7.18, p = 0$) en “Gezondheid” ($t = 3.91, p = 0$). Op het gebied van depressie en competentie werden klinisch gezien weliswaar bovengemiddelde scores gevonden, echter, de t-waarden gaven aan dat de scores van ouders van kinderen met een hartafwijking slechts in tendens afweken van de scores van de normgroep. De scores op het gebied van sociale isolatie waren gemiddeld.

Tabel 6. Opvoedingsstress

Factor	Hartouders			Niet klin. gem.			t-waarde	p-waarde
	<i>M</i>	<i>SD</i>	<i>N</i>	<i>M</i>	<i>SD</i>	<i>N</i>		
Competentie	32	9.48	37	29.4	9.1	161	1.51	p = .13 <i>ns</i>
Rolrestrictie	23.2	6.99	37	14.3	5.8	161	7.18	p = 0
Depressie	30	10.76	37	26.8	9.6	161	1.66	p = .10 <i>ns</i>
Gezondheid	18.9	7.93	37	13.6	5.0	161	3.91	p = 0
Sociale isolatie	12	6.24	37	10.8	4.2	161	1.12	p = .27 <i>ns</i>
Totaal Stress	143.8	36.42	37	121	34.9	161	3.49	p = 0

Om de derde hypothese te onderzoeken is gekeken naar de invloed van de ernst van de afwijkingen en de functionele beperkingen op de opvoedingsstress. Hiertoe werd een multiple regressieanalyse uitgevoerd (zie Tabel 7). Uit de resultaten kwam naar voren dat de ernst van de afwijking niet significant bijdroeg aan de stress van ouders ($\beta = -.17$, *ns*). Functionele beperkingen leverden wel een significante bijdrage aan de verklaring van de variantie van ouderlijke stress ($\beta = .51$, $p < .01$): hoe meer functionele beperkingen des te meer opvoedingsstress.

Om de vierde hypothese te beantwoorden werden zowel sociale ondersteuning als veerkracht toegevoegd (zie Tabel 7). Bij sociale ondersteuning werd een bèta-coëfficiënt gevonden van $-.27$ en een p-waarde van $.12$. De bijdrage van sociale ondersteuning was niet significant, maar gaf wel een tendens aan. Ten aanzien van van egoveerkracht werd geen significante bijdrage gevonden ($\beta = -.15$, $p = .39$, *ns*).

Met de invoering van zowel de risicofactoren als de beschermende factoren kon 27% van de totale variantie van opvoedingsstress worden verklaard (vijfde hypothese). Alleen de bijdrage van functionele beperkingen was significant.

Tabel 7. Multiple regressieanalyse van risicofactoren op opvoedingsstress van ouders

	Opvoedingsstress				
	Stap 1		Stap 2		
	β	Adj. R ²	β	Adj. R	R ²
Ernst van de afwijking	-.17		-.14		
Functionele beperkingen	.51**		.46**		
		.18			
Sociale ondersteuning			-.27		
Egoveerkracht			-.15		
				.27	
					.36

Noot: *:p < .05, **: p < .01

Om de zesde hypothese te onderzoeken is een tweede multiple regressieanalyse uitgevoerd (zie Tabel 8). In de hypothese werd gesteld dat de functionele beperkingen en de opvoedingsstress (= risicovariabelen) een bijdrage zouden leveren aan de tevredenheid van ouders. Van de ernst van de afwijking werd verondersteld dat deze geen bijdrage zou leveren. In de analyse werd tevredenheid van ouders als afhankelijke variabele opgenomen en werden eerst de lichamelijke risicofactoren, en vervolgens opvoedingsstress als onafhankelijke variabelen ingevoerd.

Uit de analyse bleek dat noch de ernst van de afwijking, noch de functionele beperkingen een significante bijdrage leverden aan de verklaring van de variantie van tevredenheid (resp. $\beta = .19$, *ns*; $\beta = -.14$, *ns*). Toevoeging van opvoedingsstress leverde echter een bèta-coëfficiënt op die aangaf dat ervaren opvoedingsstress een sterk negatief verband had met kwaliteit van leven ($\beta = -.68$, $p < .0001$).

Tabel 8. Multiple regressieanalyse van risicofactoren op tevredenheid van ouders

	Tevredenheid van ouders				
	Stap 1		Stap 2		
	β	Adj. R ²	β	Adj. R	R ² change
Ernst van de afwijking	.19		.08		
Functionele beperkingen	-.14		.20		
		-.02			
Opvoedingsstress			-.68***		
				.33	
					.36

Noot: *: $p < .05$, **: $p < .01$, ***: $p < .001$

Om de zevende hypothese te toetsen werden de beschermende factoren toegevoegd: sociale ondersteuning en egoveerkracht (zie Tabel 9). Volgens de hypothese zouden deze factoren een beschermende werking hebben door een positieve bijdrage te leveren aan de verklaring van de variantie van de tevredenheid van ouders. Uit de gegevens kwam naar voren dat sociale ondersteuning geen significante bijdrage leverde aan de tevredenheid van ouders ($\beta = .02$, *ns*). De tweede beschermende factor, egoveerkracht, leverde wel een significante bijdrage aan de verklaring van de variantie ($\beta = .46$, $p < .01$). Een hoge egoveerkracht verklaarde een hoge mate van levenstevredenheid. De toevoeging van de beschermende factoren bracht tevens veranderingen teweeg bij de andere variabelen. In de eerste plaats werd de bijdrage van opvoedingsstress lager, echter de bijdrage bleef significant ($\beta = -.51$, $p < .01$). Ook de bijdragen van de ernst van de afwijking en van de functionele beperkingen werden lager (resp. $\beta = -.04$, *ns*, $\beta = .15$, *ns*).

Tenslotte kon met de risicofactoren en de beschermende factoren 52% van de variantie van de tevredenheid van ouders worden verklaard. Opvoedingsstress en egoveerkracht bleken daarbij de grootste voorspellers te zijn.

Tabel 9. Multiple regressieanalyse van beschermende factoren op tevredenheid van ouders

	Tevredenheid van ouders				
	Stap 1		Stap 2		
	β	Adj. R ²	β	Adj. R	R ² change
Opvoedingsstress	-.68***		-.51**		
Ernst van de afwijking	.08		-.04		
Functionele beperkingen	.20		.15		
		.33			
Sociale ondersteuning			.02		
Egoveerkracht			.46**		
				.52	
					.20

Noot: *:p < .05, **: p < .01, ***: p < .001

Samenvatting

Uit de resultaten van dit onderzoek kwam bij vergelijking met normgegevens naar voren dat de kwaliteit van leven van ouders van een kind met een hartafwijking lager lag dan dat van andere ouders. Ook ervoeren ouders van een kind met een hartafwijking meer stress bij de opvoeding dan ouders van gezonde kinderen. Zowel de eerste als de twee hypothesen konden hiermee bevestigd worden.

Ten aanzien van factoren die de stress bij deze ouders konden verklaren werd verondersteld dat de ernst van de hartafwijking geen rol zou spelen en de functionele beperkingen van het kind wel. Beide hypothesen werden door de gegevens ondersteund.

De hypothesen dat de beschermende factoren egoveerkracht en de sociale ondersteuning een rol zouden spelen in de ervaren opvoedingsstress werden in dit onderzoek niet voldoende bevestigd. Met de invoering van risico- en beschermende factoren kon 27% van de totale variantie van de opvoedingsstress worden verklaard. Opvoedingsstress bleek voornamelijk bepaald te worden door de functionele beperkingen van het kind.

De hypothese dat risicofactoren een belangrijke bijdrage zouden leveren in de verklaring van de variantie van tevredenheid van ouders, werd deels bevestigd. De bijdrage van opvoedingsstress was significant, in tegenstelling tot de bijdrage van de ernst van de

afwijking en de functionele beperkingen die geen significante bijdrage leverden aan de verklaring van de tevredenheid van ouders.

Voor de hypothese dat sociale ondersteuning een rol van betekenis zou spelen in de tevredenheid van ouders, is in dit onderzoek geen bevestiging gevonden. Egoveerkracht daarentegen bleek significant bij te dragen aan de verklaring van de variantie van tevredenheid van ouders.

Met de risico- en beschermende factoren kon 51% van de totale variantie van de tevredenheid van ouders verklaard kon worden. Met name door opvoedingsstres en door egoveerkracht kon een belangrijk deel van de tevredenheid van ouders worden voorspeld.

Discussie

In deze scriptie werd verslag gedaan van een onderzoek naar de kwaliteit van leven van ouders van een kind met een hartafwijking. Niet alleen aspecten die verbonden waren met de ziekte van het kind, maar ook niet-ziektegerelateerde aspecten werden daarbij in ogenschouw genomen.

De belangrijkste bevindingen van deze scriptie waren: 1) dat ouders van een kind met een hartafwijking een lagere kwaliteit van leven rapporteerden dan ouders van gezonde kinderen; 2) dat ouders van een kind met een hartafwijking meer stress ervoeren bij de opvoeding van hun kind; 3) dat functionele beperkingen een bijdrage leverden aan de opvoedingsstress van ouders; 4) dat tevredenheid van ouders werd bepaald door opvoedingsstress en egoveerkracht.

Nader onderzoek naar opvoedingsstress wees uit dat deze vooral op twee domeinen speelde, namelijk de mate waarin de ouders een negatief effect van de opvoeding op hun eigen gezondheid ervoeren en de mate waarin zij zich door hun rol als ouder beperkt voelden in andere sociale rollen (rolrestrictie). In mindere mate leek er ook een tendens te zijn dat ouders meer last hadden van depressieve gevoelens rond de opvoeding en zich minder competent voelden als ouder. Opvoedingsstress werd deels verklaard door de functionele beperkingen van het kind, dus naarmate het kind meer beperkingen had, werden ouders kennelijk zo zwaar belast dat ze niet alleen minder tijd en ruimte hadden om hun persoonlijke doelen te verwezenlijken, maar ook dat hun gezondheid eronder leed, en dat ze mogelijk meer depressie en minder competentie voelden.

Het was opmerkelijk dat er geen verschil gevonden werd op het ouderdomein “sociale isolatie” tussen ouders van kinderen met een hartafwijking en de normgroep. Een mogelijke verklaring hiervoor zou gevonden kunnen worden in de samenstelling van de onderzoeksgroep, die voornamelijk bestond uit leden van een patiëntenvereniging. Kenmerkend voor deze groep ouders is het lotgenotencontact, hetgeen mogelijk consequenties heeft voor de mate waarin zij het gevoel hebben zich in een sociaal isolement te bevinden.

Met betrekking tot de rol van de beschermende variabelen, werden noch voor sociale ondersteuning, noch voor egoveerkracht significante bijdragen gevonden aan de verklaring van opvoedingsstress. De p-waarde van sociale ondersteuning echter was .12. Wanneer deze p-waarde gekoppeld wordt aan de significant negatieve correlatie tussen sociale

ondersteuning en opvoedingsstress, rijst toch het vermoeden dat er een mogelijk wel sprake is van een verband is tussen sociale ondersteuning en opvoedingsstress, maar dat dit verband niet gedetecteerd kon worden op basis van deze steekproef. Wellicht is hier sprake van een type II fout die voortkomt uit een te kleine onderzoeksgroep. In combinatie met het gegeven dat slechts 27% van de totale variantie kon worden verklaard in dit model, moet ten aanzien van opvoedingsstress geconcludeerd worden dat een aanzienlijk deel daarvan onverklaard bleef. Diepgaander en grootschaliger onderzoek naar zowel risico- als beschermende factoren ten aanzien van opvoedingsstress is dan ook aan te bevelen, juist met het oog op de belangrijke rol die opvoedingsstress speelt in de kwaliteit van leven van ouders.

Met opvoedingsstress als afhankelijke variabele kon een significant deel van de variantie van de levenstevredenheid van de ouders worden voorspeld, een resultaat dat voldeed aan de verwachtingen. Ook de verwachting dat de ernst van de afwijking van het kind geen significante bijdrage zou leveren aan de tevredenheid van ouders werd in dit onderzoek bevestigd. De mate waarin het kind functionele beperkingen ondervond leverde, in tegenstelling tot de hypothese, geen significante bijdrage aan de kwaliteit van leven van de ouders. Hier lijkt sprake te zijn van een paradox: hoewel functionele beperkingen significant stressverhogend werkten, droegen zij niet significant bij aan de tevredenheid van ouders. Mogelijk is er toch sprake van een zwakke relatie tussen functionele beperkingen en levenstevredenheid die gemedieerd wordt door opvoedingsstress, immers, deze onderzoeksgroep had maar een beperkt aantal respondenten, waardoor bestaande associaties in de populatie niet aangetoond konden worden in deze steekproef (type II fout). Onderzoek in grotere steekproeven zal dit moeten uitwijzen.

Tenslotte is gekeken naar beschermende factoren die de levenstevredenheid van ouders konden voorspellen. Tegen de verwachting in werden geen aanwijzingen gevonden voor een bijdrage van sociale ondersteuning. De hypothese dat sociale ondersteuning een beschermende factor zou zijn in de tevredenheid van ouders kon op grond van deze resultaten dan ook niet bevestigd worden. Desalniettemin kan op grond van de hoge scores op de schaal (range 1-7, $M = 5.68$, $SD = 1.01$) wél geconcludeerd worden dat de ouders uit de onderzoeksgroep veel sociale ondersteuning ervoeren. Het is goed mogelijk dat dit effect toegeschreven kan worden aan het feit dat de respondenten uit dit onderzoek deel uitmaakten van de patiëntenvereniging. Het gevolg daarvan zou kunnen zijn dat ouders uit deze onderzoeksgroep het gevoel hadden veel sociale ondersteuning te ontvangen.

Tenslotte werd de levenstevredenheid van ouders krachtig voorspeld door de factor egoveerkracht. Het ging hierbij om de mate waarin de ouder in staat was om flexibel om te

gaan met de steeds veranderende eisen van het leven en om weerstand te bieden aan negatieve ervaringen. De hypothese, dat deze intrapersoonlijke factor een positieve bijdrage zou leveren aan de levenstevredenheid van ouders kan op grond van de resultaten uit dit onderzoek bevestigd worden.

Uiteindelijk kon met het totale model 52% van de variantie van de levenstevredenheid verklaard worden; dat wil zeggen dat met de variabelen in dit onderzoek in belangrijke mate de kwaliteit van leven van de ouders van een hartekind kon worden voorspeld.

Ondanks het feit dat in dit onderzoek duidelijk een aantal factoren van de ervaren levenskwaliteit van leven van ouders van hartekinderen verhelderd worden, kent het ook een aantal tekortkomingen. Er kunnen kanttekeningen worden gezet bij zowel de omvang als de samenstelling van de onderzoeksgroep. Hoewel 37 respondenten een goed resultaat vormden voor deelname aan een onderzoek van ouders met een ernstig ziek kind, vermoedden we in een aantal gevallen dat de beperkte omvang van de steekproef verhinderde bepaalde relaties aan te tonen in de populatie (type II fouten).

Ten aanzien van de validiteit, kan men zich afvragen of de resultaten van dit onderzoek wel gegeneraliseerd kunnen worden naar alle ouders van een kind met een hartafwijking. In de eerste plaats kwam uit de beschrijving van de onderzoeksgroep naar voren dat 97 % van de kinderen van de respondenten een middelgrote of complexe hartafwijking had. Wanneer dit wordt afgezet tegen de epidemiologie van hartafwijkingen, dan blijkt dat ongeveer 50% van alle hartafwijkingen valt in de categorie lichte afwijkingen, en dat de categorie middelgrote en complexe afwijkingen samen 50% van de hartafwijkingen vertegenwoordigen. Dit betekent dat de categorie lichte afwijkingen in dit onderzoek ondervertegenwoordigd is en de categorie middelgrote en complexe hartafwijkingen oververtegenwoordigd zijn. In dat opzicht lijkt het zinvoller om de resultaten uit dit onderzoek niet te koppelen aan ouders van kinderen met alle hartafwijkingen, maar uitsluitend aan ouders van kinderen met een middelgrote of complexe hartafwijking.

Een tweede beperking ten aanzien van de validiteit van dit onderzoek komt voort uit het feit dat alle ouders geworven werden via de patiëntenvereniging van ouders van kinderen met aangeboren hartafwijkingen. Voor deze ouders geldt dat het om tamelijk mondige mensen gaat, wat door artsen en orthopedagogen bevestigd wordt. Het is goed mogelijk dat andere resultaten naar voren zouden komen uit onderzoek onder ouders die niet aangesloten zijn bij een patiëntenvereniging. Men zou zich voor kunnen stellen dat er meer variatie zou zijn in de factor sociale ondersteuning. Mogelijk is ook de mate van egoveerkracht anders in een steekproef van ouders die geen lotgenotencontact zoeken.

Een laatste tekortkoming van dit onderzoek is het feit dat alle vragenlijsten waren gebaseerd op de zelfbeoordeling van ouders. Het bezwaar van dergelijke vragenlijsten is dat er sprake is van een subjectieve meting, doordat elke respondent uitsluitend vanuit zijn persoonlijk referentiekader kan redeneren. Anderzijds is het juist dat persoonlijke referentiekader dat de kwaliteit van leven bepaalt en moet men zich afvragen of het wel mogelijk is om hier een objectieve maat in aan te brengen.

Implicaties van dit onderzoek

Door deze scriptie is meer zicht gekregen op de kwaliteit van leven van ouders van een kind met een hartafwijking. Dit inzicht is belangrijk om doelgerichte interventies te kunnen ontwikkelen. De resultaten uit dit onderzoek wijzen uit, dat aan ouders van een kind met een hartafwijking extra ondersteuning geboden zou moeten worden om de kwaliteit van hun eigen leven te verhogen. Interventies zouden bij voorkeur op twee doelen gericht moeten worden: in de eerste plaats zou een vorm van interventie gericht moeten zijn op vermindering van opvoedingsstress, toegespitst op de mate waarin ouders “tijd hebben voor zichzelf” en de mate waarin de verzorging hun lichaam belast, zowel in fysiek als psychisch opzicht. Met name ouders van kinderen die te maken hebben met veel functionele beperkingen, zouden meer ontlast moeten worden. Hierbij kan bijvoorbeeld gedacht worden aan gerichte mantelzorg of professionele ondersteuning in de verzorging van het kind.

De tweede invalshoek van waaruit interventie opgezet zou moeten worden is die van de vergroting van de ego-veerkracht van ouders. Dit betekent dat ouders door middel van coaching begeleid zouden kunnen worden in het flexibeler leren omgaan met de onzekerheden die het hebben van een kind met een hartafwijking met zich meebrengt.

Bibliografie

Referenties

- Aram, D. M., Ekelman, B.L., Ben-shachar, G., & Levinsohn, M.W. (1985). Intelligence in children with congenital heart disease: fact or artifact? *J.Am.Coll.Cardiol. Oct; 6(4)*, 889-93. Available at: http://www.ncbi.nlm.nih.gov/entrez/query.fcgi?cmd=Retrieve&db=PubMed&list_uids=4031304&dopt.
- Behrman, R. E., Kliegman, R., & Jenson, H. B. (2000). The cardiovascular system. *Nelson textbook of pediatrics*, 479-544. Philadelphia, WB Saunders, 16th edition.
- Block, J. (2002). Personality as an affect-processing system: Toward an integrative theory. London, U.K.: Lawrence Erlbaum Associates, Publishers.
- Davis, C., Craig, M. A., Brown, R. T., Ph.D., Bakeman, R., Ph.D., & Campbell, R., MD (1998). Psychological Adaptation and Adjustment of Mothers of Children With Congenital Heart Disease: Stress, Coping, and Family Functioning. *Journal of Pediatric Psychology, Vol 23, no 4*, 219-228.
- Goldberg, S., Morris, P., Simmons, R. J., Fowler, R. S., & Levison, H. (1990). Chronic Illness in Infancy and Parenting Stress: a comparison of Three groups of parents. *Journal of Pediatric Psychology, vol 15, no 3*, 347-358.
- Harper, D. C. (1991). Paradigms for Investigation Rehabilitation and Adaptation to Childhood Disability and Chronic Illness. *Journal of Pediatric Psychology, vol 16, no 5*, 533-542.
- Horn, M. van, Ph.D., DeMaso, D. R., Gonzalez-Heydrich, J. M.D., Dahlmeyer Erickson, J., Ph.D. (2001). Illnes Related Concerns of Mothers of Children with Congenital Heart Disease. *J. Am. Acad. Child Adolesc. Psychiatry, 40:7*.
- Lawoko, S., & Soares, J. J. F. (2002). Distress and hopelessness among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases, and parents of healthy children. *Journal of Psychosomatic Research 52*, 193-208.
- Lawoko, S., & Soares, J. J. (2003). Quality of life among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases and parents of healthy children. *Qual Life Res, 12(6)*, 655-666.
- Lazarus, R. (1991). Progress on an Cognitive-Motivational-Relational Theory of Emotion. *American Psychological Association, vol 46(8)*, 819-834.
- Masi, G., & Brovedani, P. (1999). Adolescents with congenital heart disease: psychopathological implications. *Adolescence. 1999 Spring; 34 (133)*: 185-91.

Available at: http://www.findarticles.com/p/articles/mi_m2248/is_133_34/ai_54657538

- Meulen, B.F., van der (2004). Orthopedagogische thuisbegeleiding aan gezinnen met een chronisch ziek kind. *Tijdschrift voor orthopedagogiek*, 43, 91-103.
- Moons, Ph. (2004). Quality of life in adults with congenital heart disease: beyond the quantity of life. Thesis. Faculty of medicine, Katholieke Universiteit Leuven.
- Moos, R.H., & Tsu, V.D. (1977). In: Moos, R.(ed) .*Coping with physical illness*. New York, Plenum Press.
- Pelchat, D., Ricard, N., Bouchard, J-M., Perreault, M., Saucier, J-F., Berthiaume, M., & Bisson, J. (1999). Adaptation of parents to their 6-month-old infant's type of disability. *Child: Care, Health & Development*, vol 25, no 4, 377-397.
- Rao, P., Pradhan, P.V., Shah, H. (2004). Psychopathology and Coping in Parents of Chronically Ill Children. *Indian J. Pediatr. [serial online] 2004. 71: 695-699*. Available from: <http://pediatricsindia.org/article.asp?issn=0019-5456;year=2004;volume=71;issue=8;spage=695;epage=699;aulast=Rao>.
- Utens, E. M., Versluis-Den Bieman, H. J., Verhulst, F.C., Witsenburg, M., Bogers, A. J. J. C., & Hess, J. (2000). Psychological distress and styles of coping in parents of children waiting elective cardiac surgery. *Cardiology Young*; 10, 239-244.
- Visconti, K.J., Saudino, K.J., Rappaport, L.A., Newburger, J.W. & Bellinger, D.C. (2002). Influence of parental stress and social support on the behavioral adjustment of children with transposition of the great arteries. *J. Dev. Behav. Pediatr*; 23(5), 314-321.
- Wallander, J. L., Thompson, R. J. J., & Alriksson-Schmidt, A. (2003). Psychosocial adjustment of children with chronic physical conditions. In M. C. Roberts (Ed.), *Handbook of pediatric psychology* (3rd Edition) (pp. 141-158). London, UK: The Guilford Press.
- Wallander, J. L., Varni, J. W., Babani, L., DeHaan, C. B., Thompson Wilcox, K. T. , & Banis, H. T. (1989). The Social Environment and The Adaptation of Mothers of Physically Handicapped Children. *Journal of Pediatric Psychology*, vol 14, no 3, 371-387.
- Wallander, J. L., & Varni, J. W. (1998). Effects of Pediatric Disorders on Child and Family Adjustment. *J. Child. Psychol. Psychiatr. Vol 39, no 1, 29-46*.
- World Health Organization (2001) *International Classification of Functioning, Disability and Health*. Geneva.

Instrumenten

Reductie 100 item California Adult Q-set (CAQ) naar 14 items ego-resiliency

Block, J. (1961/1978). *The Q-sort method in personality assessment and psychiatric research*. Springfield, IL: C. C. Thomas ; reprinted 1978, Palo Alto, CA : Consulting Psychology Press.

Reductie 56 item ouderdomeinen ouderlijke stress naar 38 + 1 items: competentie, rolrestrictie, hechting, depressie, gezondheid, sociale isolatie.

Brock, A.J.L.L., de, Vermulst, A.A., Gerris, J.R.M., & Abidin, R.R. (1992). *NOSI: Nijmeegse Ouderlijke Stress Index. Handleiding experimentele versie*. Lisse: Swets & Zeitlinger.

The Satisfaction with life Scale

Diener, E., Emmons, R.A., Larson, R.J., Griffin, S. (1985). The Satisfaction with Life Scale. *J. Pers. Assess*; 49: 71-75.

Bewerking sociale ondersteuning (GVO)

Gerris, J.R.M., Houtmans, M.J.M., Kwaaitaal-Roosen, E.M.G., Schipper, J.C. de, Vermulst, A.A., & Janssens, J.M.A.M. (1998). *Parents, adolescents and young adults in Dutch families: a longitudinal study*. Nijmegen, NL: Institute of Family Studies, University of Nijmegen.

Bewerking van algemene gegevens:

Scholte, E.M. (1993). *De vragenlijst sociale en pedagogische situatie. Handleiding en gebruik van de VSPS. Versie 3.0*. Delft: Eburon.

Types of congenital heart diseases

Warnes, C. A., Liberthson, R., Danielson, G.K., Dore, A., Harris, L., Hoffmann, J.L., et al. (2001). Task Force 1: the changing profile of congenital heart disease in adult life. *J. Am. Coll. Cardiol*, 37: 1170-1175