

Ergebnisbericht

(gemäß Nr. 14.1 ANBest-IF)

Konsortialführung:	Albert-Ludwigs-Universität Freiburg
Förderkennzeichen:	01VSF18005
Akronym:	SMA-C+
Projekttitel:	Entwicklung und Evaluation eines IT-gestützten Case Managements zur Verbesserung der Versorgung von Patient*innen mit Spinaler Muskelatrophie (SMA)
Autoren:	PD Dr. med. Thorsten Langer, Prof. Dr. Erik Farin-Glattacker, Jana Willems
Förderzeitraum:	1. Februar 2019 – 31. Juli 2022

Inhaltsverzeichnis

I.	Abkürzungsverzeichnis.....	4
II.	Abbildungsverzeichnis.....	4
III.	Tabellenverzeichnis.....	5
1.	Zusammenfassung.....	6
2.	Beteiligte Projektpartner.....	7
3.	Projektziele.....	8
3.1.	Hintergrund.....	8
3.1.1.	Patient*innengruppe.....	8
3.1.2.	Aktueller Versorgungsstand.....	9
3.2.	Das SMA-C+-Projekt.....	9
3.3.	Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS).....	10
3.4.	Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II.....	10
3.4.1.	Semi-strukturierte Interviews mit Eltern und Betreuungstagebücher.....	10
3.4.2.	Semi-strukturierte Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden.....	11
3.5.	Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements..	11
3.5.1.	Prozessevaluative Forschungsfrage.....	12
3.5.2.	Ergebnisevaluative Forschungsfragen.....	12
3.5.3.	Gesundheitsökonomische Forschungsfrage.....	12
4.	Projektdurchführung.....	13
4.1.	Intervention: Case Management.....	13
4.1.1.	Merkmale der CM-Intervention.....	14

4.2.	Implementierung der Intervention	14
4.2.1.	Erfahrungen mit der Implementierung.....	15
4.3.	Generelle Erfahrungen mit der Rekrutierung (in allen Phasen).....	15
5.	Methodik	16
5.1.	Studiendesign	16
5.2.	Zielpopulation.....	17
5.3.	Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS)	17
5.3.1.	Teilnehmende und Rekrutierung	17
5.3.2.	Datenerhebung	18
5.4.	Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II	21
5.4.1.	Teilnehmende und Rekrutierung	21
5.4.1.	22
5.4.2.	Entwicklung der Interviewleitfäden	22
5.4.3.	Durchführung der semi-strukturierten Interviews und Transkription.....	22
5.4.4.	Analysen zur Auswertung der semi-strukturierten Interviews.....	23
5.4.5.	Entwicklung der Betreuungstagebücher.....	24
5.4.6.	Analysen zur Auswertung der Betreuungstagebücher	24
5.5.1.	25
5.5.	Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements..	25
5.5.1.	Fallzahlberechnung	25
5.5.1.	Teilnehmende und Rekrutierung	25
5.5.2.	Ergebnisevaluation - Messung der primären Endpunkte	26
5.5.3.	Ergebnisevaluation - Messung des sekundären Endpunkts.....	27
5.5.4.	Prozessevaluation der CM-Intervention	27
5.5.5.	Analysen der Ergebnis- und Prozessevaluation	28
6.	Projektergebnisse.....	29
6.1.	Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS)	29
6.1.1.	Stichprobencharakteristika	29
6.1.2.	Angaben zur strukturellen Validität	30
6.1.3.	Abweichungen gegenüber der ursprünglichen Planung.....	32

6.2.	Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II	32
6.2.1.	Stichprobencharakteristika	32
6.2.2.	Ergebnisse der semi-strukturierten Interviews mit Eltern.....	33
6.2.3.	Ergebnisse der semi-strukturierten Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden	53
6.2.4.	Ergebnisse der Betreuungstagebücher	55
6.2.5.	Abweichungen gegenüber der ursprünglichen Planung.....	58
6.3.	Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements..	59
6.3.1.	Rücklauf der Fragebögen und Stichprobencharakteristika.....	59
6.3.2.	Ergebnisevaluation – Messung der primären Endpunkte.....	61
6.3.3.	Ergebnisevaluation – Messung des sekundären Endpunkts.....	64
6.3.4.	Prozessevaluation der CM-Intervention	66
6.3.5.	Gesundheitsökonomische Evaluation	79
6.3.6.	Abweichungen gegenüber der ursprünglichen Planung.....	80
7.	Diskussion der Projektergebnisse	82
7.1.	Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS)	82
7.2.	Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II	83
7.3.	Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements.....	86
8.	Verwendung der Ergebnisse nach Ende der Förderung	90
9.	Erfolgte bzw. geplante Veröffentlichungen	90
10.	Literaturverzeichnis.....	91
11.	Anhang	96
12.	Anlagen.....	96
12.1.	Anlagenliste	96

I. Abkürzungsverzeichnis

Abkürzung	Bedeutung
CCMT	Care Coordination Measurement Tool
CFA	Konfirmatorische Faktorenanalyse
CFI	Comparative Fit Index
CM	Case Management
DGM	Deutsche Gesellschaft für Muskelkranke e.V.
DRV	Deutsche Rentenversicherung
EFA	Explorative Faktorenanalyse
FaBel	Familien-Belastungs-Fragebogen
FaBel-T	FaBel Gesamtwert
FACIT	Functional Assessment of Chronic Illness Therapy Translation Procedures and Guidelines
FI	PICS-D-Skala: „Auswirkungen auf die Familie“
GLQ	Gesundheitsbezogene Lebensqualität
IG	Interventionsgruppe
KG	Kontrollgruppe
KMO	Kaiser-Mayer-Olkin-Kriterium
PedsQL	Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 SF15
PedsQL-T	PedsQL Gesamtwert
PICS-D	Pediatric Integrated Care Survey, dt. Version
QM	Qualitätsmanagement
RMSEA	Root Mean Square Error of Approximation
SAPV	Spezialisierte ambulante Palliativ-Versorgung
SEVERA	Sektion Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung
SF-12	Short-Form-Health-Survey
SF12-K	SF-12 Skala „Körperliche Gesundheit“
SF12-P	SF-12 Skala „Psychische Gesundheit“
SMA	Spinale Muskelatrophie
TLI	Tucker-Lewis Index
TQC	PICS-D-Skala: „Teamqualität & -kommunikation“

II. Abbildungsverzeichnis

Abbildung 1: Projektstruktur der SMA-C+-Studie	8
Abbildung 2: Fünf Phasen des Case Managements (modifiziert nach Wendt, 2018)	13
Abbildung 3: Flussdiagramm teilnehmender Eltern in Phase 2	23

Abbildung 4: Flussdiagramm teilnehmender Gesundheitsdienstleistender in Phase 2	23
Abbildung 5: Flussdiagramm teilnehmender Eltern in Phase 3	26
Abbildung 6: Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die PICS-D-Skala „Teamqualität & -kommunikation“	61
Abbildung 7: Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die PICS-D-Skala „Auswirkungen auf die Familie“	62
Abbildung 8: Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für den FaBel Gesamtwert	63
Abbildung 9: Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die SF-12-Skala „Körperliche Gesundheit“	64
Abbildung 10: Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die SF-12-Skala „Psychische Gesundheit“	64
Abbildung 11: Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für den PedsQL Gesamtwert	65

III. Tabellenverzeichnis

Tabelle 1: Wortlaut der finalen Kernitems des PICS-D	19
Tabelle 2: Deskriptive Charakteristika der N= 204 befragten Eltern und SMA-Patient*innen	29
Tabelle 3: Explorative Faktorenanalyse der psychometrisch getesteten Likert-skalierten PICS-D-Items	31
Tabelle 4: Deskriptive Charakteristika der N= 21 interviewten Eltern	32
Tabelle 5: Finales Codesystem der semi-strukturierten Interviews mit Eltern und Gesundheitsdienstleistenden in Phase 2	33
Tabelle 6: Über einen vierwöchigen Zeitraum durch N = 15 Eltern dokumentierte Koordinationstätigkeiten.....	55
Tabelle 7:	57
Tabelle 8: Rücklauf der Fragebögen zu den drei Messzeitpunkten T0-T1.....	59
Tabelle 9: Deskriptive Charakteristika der befragten Eltern und SMA-Patient*innen zu T0, getrennt nach Gruppen.....	59
Tabelle 10: Skalenwerte der PICS-D Skalen getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten ..	61
Tabelle 11: FaBel Gesamtwert getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten	62
Tabelle 12: Skalenwerte der SF-12 Skalen getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten	63
Tabelle 13: PedsQL Gesamtwert getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten	65
Tabelle 14: LMM Ergebnisse für primäre und sekundäre quantitative Endpunkte.....	66
Tabelle 15: Finales Codesystem der semi-strukturierten Interviews in Phase 3	67
Tabelle 16: Aufgewandte Zeit (Std.) und Kosten (€) im Rahmen des CM für Tätigkeiten mit und ohne direkten Familienkontakt für den durchschnittlichen Betreuungszeitraum von 19,37 Monaten.....	80
Tabelle 17: Aufgewandte Zeit (Std.) und Kosten (€) im Rahmen des CM für Tätigkeiten mit und ohne direktem Familienkontakt für einen Betreuungszeitraum von 12 Monaten	80

1. Zusammenfassung

Hintergrund: Die Spinale Muskelatrophie (SMA) ist eine seltene neuromuskuläre Erkrankung, die durch eine Degeneration der Vorderhornzellen im Rückenmark gekennzeichnet ist und zu einer zunehmenden, proximal betonten Muskelschwäche führt. Die SMA zeigt ein breites Spektrum an Symptomen und Folgeerscheinungen, so dass für die Versorgung verschiedene klinische Spezialist*innen und Therapeut*innen erforderlich sind. Aufgrund des dynamischen Krankheitsverlaufs und der großen Entfernungen zwischen spezialisierten Zentren und lokalen Versorgenden kann die Integration der Behandlung zwischen den Disziplinen eine Herausforderung darstellen. Eine unzureichende Behandlungsintegration kann zu einer suboptimalen Versorgungsqualität und zu Belastungen für Patient*innen und Familien führen. Dieses Projekt zielte darauf ab, die Versorgung von Patient*innen mit SMA Typ I und II durch eine Case-Management-Intervention zu verbessern.

Methoden: Es wurde eine explorative, kontrollierte, zweiarmlige Studie mit Prä-, Post- und Follow-Up-Messungen, einer Prozess- und Ergebnisevaluation sowie einer gesundheitsökonomischen Evaluation durchgeführt, um die Case-Management-Intervention zu bewerten. In der ersten Projektphase wurde ein amerikanisches Family-Reported Outcome Measure zur elterlichen Bewertung der Behandlungsintegration übersetzt und psychometrisch geprüft (PICS-D). Mittels einer multiperspektivischen Ist-Analyse wurden in Phase 2 die Erfahrungen von Eltern und Gesundheitsdienstleistenden in Bezug auf die Versorgungsqualität sowie informelle Kosten erfasst. Dafür kamen semi-strukturierte Interviews und Betreuungstagebücher zu Einsatz. Auf dieser Datenbasis wurde eine SMA-spezifische Case-Management-Intervention konzipiert. Die Effekte der Intervention wurden im Vergleich zu einer Kontrollgruppe mithilfe eines Mixed-Methods-Designs (Kombination aus qualitativer und quantitativer Methoden) in Phase 3 untersucht. Als primäre Endpunkte der Ergebnisevaluation diente die gesundheitsbezogene Lebensqualität (GLQ) der Eltern und die elterlich wahrgenommene Qualität der Behandlungsintegration. Sekundärer Endpunkt war die GLQ des Kindes. Die Prozessqualität wurde mithilfe semi-strukturierter Interviews bewertet. In der gesundheitsökonomischen Evaluation wurden die Interventionskosten geschätzt und mit den informellen Kosten aus Phase 2 verglichen.

Ergebnisse: Faktorenanalysen ergaben drei Faktoren für den PICS-D. Die 3-Faktoren-Struktur zeigte in einer confirmatorischen Faktorenanalyse eine akzeptable Modellgüte. Aufgrund der unzureichenden Reliabilität des dritten Faktors wird jedoch empfohlen, nur die Faktoren 1 und 2 für die Auswertung zu verwenden. Das Codesystem aus Phase 2 bestand aus 7 Hauptcodes und 12 Subcodes, die einen Einfluss auf die Behandlungscoordination haben. Die mittleren informellen Kosten lagen bei 9.358,44 €/Jahr. Die auf Basis der Ergebnisse von Phase 2 entwickelte Case-Management-Intervention erzielte in der Ergebnisevaluation nur bei einer Fragebogenskala (PICS-D „Teamqualität & -kommunikation“) die angestrebte Effektgröße. Die Prozessevaluation ergab 3 Hauptcodes und 8 Subcodes. Die mittleren Interventionskosten lagen bei 102,27 €/Jahr.

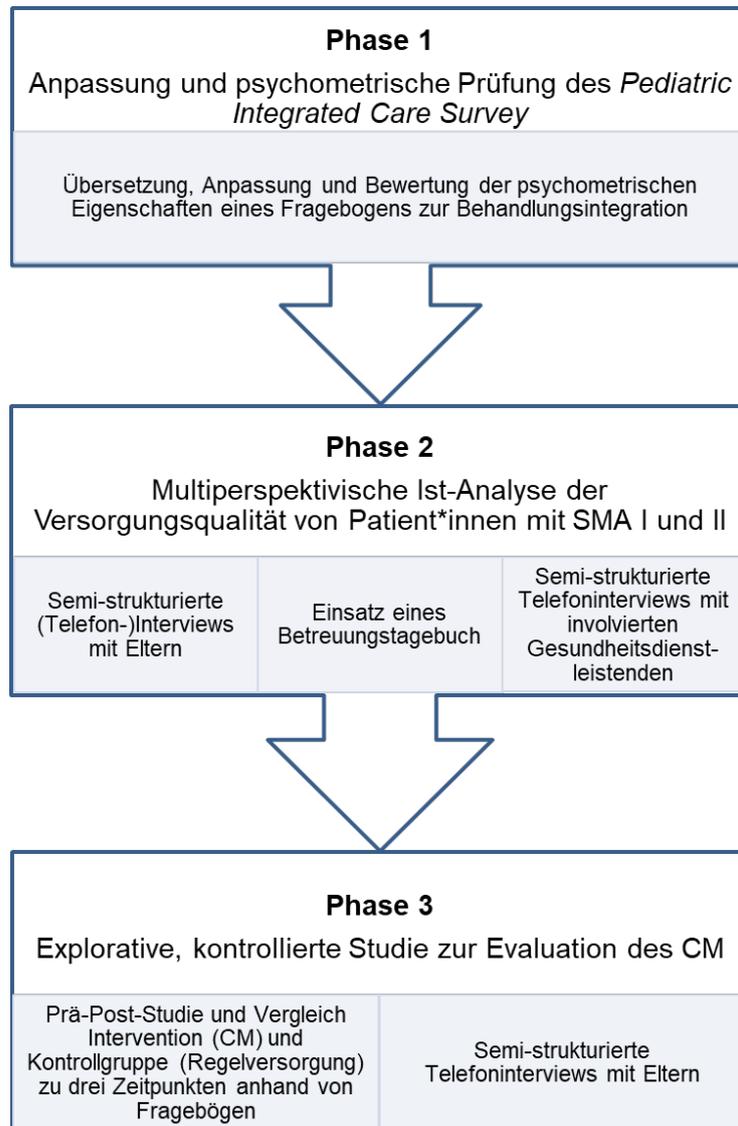
Diskussion: Der PICS-D umfasst 13 Items und weist gute psychometrische Eigenschaften auf. Die Behandlungscoordination und -integration bei Patient*innen mit SMA ist gemäß den Ergebnissen aus Phase 2 verbesserungswürdig. Durch die Evaluation in Phase 3 liegen Ergebnisse zur Durchführbarkeit und Akzeptanz, zu ausgewählten Ergebnisgrößen, zur Prozessqualität sowie zu Kosten einer SMA-spezifischen CM-Intervention vor. Auf dieser Grundlage können zukünftige randomisierte, kontrollierte, multizentrische Studien geplant werden. Erfahrungen aus dieser Studie können zudem für Versorgungsstrategien in anderen Regionen und für andere (nicht pädiatrische) Patient*innengruppen mit seltenen Krankheiten und/oder chronischen, komplexen Erkrankungen von Nutzen sein.

2. Beteiligte Projektpartner

Name	Institution, E-Mail, Telefon; Fax	Rolle/Verantwortung
Dr. Thorsten Langer	<u>Klinik für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen,</u> Zentrum für Kinder- und Jugendmedizin, Universitätsklinikum Freiburg E-Mail: thorsten.langer@uniklinik-freiburg.de Tel: 0761 270-43442; Fax: -44460	Projektleitung, Ansprechpartner für Rückfragen nach Projektende
Prof. Erik Farin-Glattacker	<u>Sektion Versorgungsforschung und</u> <u>Rehabilitationsforschung,</u> Koordinierungsstelle Versorgungsforschung, Universitätsklinikum Freiburg E-Mail: erik.farin@uniklinik-freiburg.de Tel: 0761 270-74430; Fax: -73310	Forschungsmethodik, Datenanalysen
Prof. Janbernd Kirschner	<u>Klinik für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen,</u> Zentrum für Kinder- und Jugendmedizin, Universitätsklinikum Freiburg E-Mail: janbernd.kirschner@uniklinik-freiburg.de Tel: 0761 270-43150; Fax: -44750	Klinikdirektor
Prof. Ulrike Schara	<u>Universitätsklinikum Essen, Klinik für Kinderheilkunde</u> <u>↳ Abteilung für Neuropädiatrie</u> Email: ulrike.schara@uk-essen.de Tel: 0201/723-2508; Fax: - 5389	Rekrutierung der Patient*innen/ Familien
Dr. Veronka Horber	<u>Universitätsklinikum Tübingen, Kinderheilkunde III:</u> Neuropädiatrie, Entwicklungsneurologie und Sozialpädiatrie Email: veronka.horber@med.uni-tuebingen.de Tel: 07071/29-84734; Fax: -5236	Rekrutierung der Patient*innen/ Familien
Dr. Annette Mund	<u>Kindernetzwerk e.V. Berlin und Mainaschaff</u> Email: mund@knw.de	Rekrutierung der Patient*innen/ Familien
Eva Stumpe	<u>Initiative Spinale Muskelatrophie</u> Email: stumpe@dgm.org	Rekrutierung der Patient*innen/ Familien
Sabine Wider, Rita Ambs	<u>Klinik für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen,</u> Zentrum für Kinder- und Jugendmedizin, Universitätsklinikum Freiburg E-Mail: sabine.wider@uniklinik-freiburg.de Tel: 0761 270-43440; Fax: -44460	Durchführung Case Management

Abbildung 1

Projektstruktur der SMA-C+-Studie



3. Projektziele

3.1. Hintergrund

3.1.1. Patient*innengruppe

SMA ist eine genetisch bedingte, neuromuskuläre Erkrankung, die durch die Degeneration von Alpha-Motoneuronen im Rückenmark aufgrund des Verlusts oder der Fehlfunktion des SMN-1-Gens (5q11-q13) gekennzeichnet ist (Mercuri et al., 2018). Die Inzidenz liegt bei 1:6.000 bis 1:10.000 Geburten/Jahr. SMA umfasst ein Krankheitsspektrum mit unterschiedlichen Schweregraden. Die Phänotypen werden in SMA I - III unterteilt, wobei SMA I der schwerste und häufigste Subtyp ist (Mercuri et al., 2018). Der Ausbruch der Krankheit im Säuglingsalter ist mit einer erheblichen Verkürzung der Lebenserwartung verbunden (Kolb & Kissel, 2015). Entsprechend der aktuellen Empfehlungen ist bei diesem Patient*innen-Kollektiv eine multidisziplinäre Betreuung erforderlich. Dank therapeutischer Fortschritte und signifikanter Verbesserungen in der pharmakologischen Behandlung konnte die durchschnittliche Lebenserwartung gesteigert werden (Al-Zaidy et al., 2019; Baranello et al., 2021; Dabbous et al.,

2019; Dhillon, 2020; Finkel et al., 2017; Mendell et al., 2017). Dennoch ist SMA in den letzten Jahren für die Mehrzahl der Patient*innen eine chronische komplexe Erkrankung geblieben (Borell et al., 2015). Dieses Projekt bezieht sich auf Patient*innen mit SMA Typ I und II. Zur besseren Lesbarkeit wird im Folgenden „Patient*innen mit SMA“ verwendet.

3.1.2. Aktueller Versorgungsstand

Die Betreuung der Patient*innen ist nur durch ein multidisziplinäres Versorgungsnetz möglich (Mercuri et al., 2018; Yeo & Darras, 2020). Unter Versorgungsnetz werden alle Personen, Organisationen und Institutionen definiert, die an der Versorgung des/der Patient*in beteiligt waren. Es gibt „lokale“ Versorgende in der Nähe des Wohnorts der Familien (z.B. Ergotherapie, Physiotherapie, Logopädie und häusliche Pflegedienste) und spezialisierte Einrichtungen (z.B. Muskelzentrum, Sozialpädiatrisches Zentrum (SPZ) usw.), die neben der medikamentösen Therapie auch andere SMA-spezifische Leistungen anbieten und oft weiter entfernt sind. Aufgrund der Fragmentierung des Gesundheitssystems verbringen die Eltern viel Zeit mit der Koordination von Terminen, der Kommunikation zwischen Anbietern, der Klärung sozialrechtlicher Fragen und vielem mehr (Kuo et al., 2018). Aufgrund des rasch progredienten Verlaufs der Erkrankung ist eine effektive Behandlungscoordination, d.h. ein effektives Zusammenwirken zwischen Referenzzentren (Muskelzentren), lokalen Versorgenden und Familien notwendig, das sich flexibel an die sich ändernden Bedürfnisse des Kindes anpassen kann. Darüber hinaus benötigen viele Familien aktuelle Informationen, Beratung sowie psychosoziale Unterstützung in der Bewältigung der Belastungen und bei weitreichenden Behandlungsentscheidungen mit Auswirkungen auf Qualität und Länge des Lebens ihrer Kinder sowie auf den gesamten Familienalltag.

Neue Versorgungskonzepte, die auf die Bedürfnisse der Familien eingehen und den Informationsfluss zwischen Muskelzentren und lokalen Versorgenden optimieren, sind dringend erforderlich. Aus diesem Grund wurde das Projekt SMA-C+ (Entwicklung und Evaluation eines IT-gestützten Case Managements zur Verbesserung der Versorgung von Patient*innen mit Spinaler Muskelatrophie) initiiert und vom Innovationsausschuss unter dem Förderkennzeichen 01VSF18005 bewilligt. In diesem Projekt untersuchten wir die Auswirkungen einer Case-Management-Intervention (CM) auf die Behandlungsintegration von Patient*innen mit SMA sowie auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität der betroffenen Familien. Der Begriff „Behandlungsintegration“ umfasst alle Aspekte der Behandlungscoordination, beschreibt aber zusätzlich ein flexibleres Versorgungssystem, das auf die Bedürfnisse der Patient*innen und Familien eingehen kann. Er beinhaltet daher Patientenzentriertheit (Singer et al., 2011) und bewertet die Qualität der koordinierten Aktivitäten aus der Perspektive der Familien (Hjorth et al., 2019). Eine gute Behandlungscoordination ist eine Voraussetzung für eine gute Behandlungsintegration.

3.2. Das SMA-C+-Projekt

Die SMA-C+-Studie bestand aus drei konsekutiv aufeinander aufbauenden Phasen (Abbildung 1). Im folgenden Abschnitt sind Ziele sowie die primären und sekundären Forschungsfragen und die jeweiligen Hypothesen den drei Projektphasen zugeordnet dargestellt. Die Outcome-Messung erfolgte primär aus Sicht der betroffenen Eltern/Betreuungspersonen, weshalb sie die primären Endpunkte darstellten. Ab diesem Abschnitt wird der Begriff „Eltern“ stellvertretend für ein Elternteil oder eine Betreuungsperson eines Kindes mit SMA I oder II verwendet. Die Perspektiven der Gesundheitsdienstleistenden sowie Veränderungen beim dem/der Patient*in werden als sekundäre Endpunkte untersucht.

3.3.Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS)

Im Rahmen der ersten Phase adaptierten wir den Pediatric Integrated Care Survey (PICS; Ziniel et al., 2016). Dies ist ein Family-Reported Outcome Measure zur Bewertung der Qualität der Behandlungsintegration in der Pädiatrie durch Eltern chronisch kranker Kinder. Wir erstellten eine deutschsprachige Version (PICS-D) und führten eine Prüfung der psychometrischen Eigenschaft durch. Dabei wurde die Konstruktvalidität anhand explorativer und konfirmatorischer Faktorenanalysen (strukturelle Validität) untersucht. Die Reliabilität wurde mithilfe von Cronbachs α - und McDonalds ω -Koeffizienten bewertet. Durch kognitive Interviews evaluierten wir das Verständnis des Wortlauts und die Angemessenheit der Items. Das Instrument wurde in Phase 3 verwendet, um die Effekte des Case Managements aus der Sicht der Eltern zu bewerten.

Primäre Forschungsfrage

- (1) Wie sind die psychometrischen Eigenschaften des PICS-D Fragebogens in der deutschen Validierungsstudie?

Arbeitshypothese: Die psychometrischen Eigenschaften des PICS-D sind akzeptabel. Der Fragebogen ist geeignet, um die Qualität der Behandlungsintegration zu erfassen.

3.4.Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II

3.4.1. *Semi-strukturierte Interviews mit Eltern und Betreuungstagebücher*

In Phase 2 wurden mithilfe von semi-strukturierten Interviews Erfahrungen von Eltern von Kindern mit SMA I und II hinsichtlich der aktuellen Versorgungsqualität (insbesondere bzgl. der Qualität der Behandlungsintegration) erhoben. Ziel war dabei, Barrieren und Förderfaktoren in der Behandlungsintegration sowie Bedarf und Entlastungsmöglichkeiten aufseiten der Eltern zu explorieren. Zusätzlich kamen Betreuungstagebücher zum Einsatz, die die elterlich geleisteten Aktivitäten im Rahmen der Behandlungsintegration erfassen. Dabei handelte es sich um einen Dokumentationsbogen, mit dem die Art, die Dauer sowie der Zeitpunkt einer Tätigkeit i.S. eines Tagebuchs dokumentiert wurden. Auf diese Weise ließen sich die Verteilung der Koordinationsarbeit sowie die entstehenden, indirekten Kosten beschreiben. Auf Basis der gewonnenen Information aus semi-strukturierten Interviews und Betreuungstagebüchern entwickelten wir ein SMA-spezifisches Case Management.

Für die Befragung der Eltern galten folgende primäre Forschungsfragen und Arbeitshypothesen:

Primäre Forschungsfragen (bezogen auf die Versorgungsqualität)

- (1) Wer ist an der Versorgung der teilnehmenden Patient*innen beteiligt?
- (2) Welche Arbeiten erbringen Eltern und Familienangehörige, um die verschiedenen Behandlungen zu koordinieren und aufeinander abzustimmen?
- (3) Wo sehen Eltern und Familienangehörige Probleme und Verbesserungsbedarf? Mit welchen Aspekten der Gesamtversorgung sind sie zufrieden?
- (4) Welche informellen Kosten entstehen durch die Koordinationsarbeit der Familien?

Arbeitshypothesen: Die betroffenen Familien benötigen ein multiprofessionelles Netz von Ärzten, Pflegediensten, Therapeuten und Helfern aus dem nicht-medizinischen Bereich. Die Zusammensetzung variiert in Abhängigkeit vom aktuellen Gesundheitszustand des Kindes, dem Stadium der Erkrankung, der regionalen Verfügbarkeit sowie den Präferenzen der Familie. Die Inanspruchnahme der therapeutischen Leistungen und ihre Koordination nehmen

(individuell unterschiedlich) erhebliche zeitliche und finanzielle Ressourcen in Anspruch und haben einen prägenden Einfluss auf das Familienleben. Die Qualität der Behandlungsintegration wird insgesamt als verbesserungswürdig erachtet. Die informellen Kosten der durch die Eltern erbrachten Arbeiten sind erheblich.

Primäre Forschungsfrage (bezogen auf die Konzeption eines Case Managements)

(5) Welche Anforderungen muss ein Case Management aus Sicht der Eltern erfüllen, um die Qualität der Behandlungsintegration bestmöglich zu verbessern?

Arbeitshypothesen: Ein Case Management sollte durch eine Bezugsperson erfolgen, die 1) über klinische Erfahrung mit der Krankheit verfügt, 2) über die aktuellen Behandlungsmöglichkeiten sehr gut informiert ist, 3) verlässlich im Kontakt ist und flexibel auf die Bedürfnisse der Familie eingehen kann. Das Case Management sollte sich einerseits individuell anpassen und andererseits in regelmäßigen Abständen strukturierte Assessments der Versorgungssituation vornehmen.

3.4.2. Semi-strukturierte Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden

Die Ergebnisse von Phase 2 wurden durch semi-strukturierte Interviews mit in die Behandlung der Kinder involvierten Gesundheitsdienstleistenden (z.B. niedergelassene Kinderärzt*innen, Therapeut*innen) unterstützt.

Für die Befragung der involvierten Gesundheitsdienstleistenden galten folgende sekundäre Forschungsfragen und Arbeitshypothesen:

Sekundäre Forschungsfragen

- (1) Welche Arbeiten erbringen Ärzt*innen, Therapeut*innen und Behandelnde anderer Professionen um die verschiedenen Behandlungen zu koordinieren und aufeinander abzustimmen?
- (2) Wo sehen Ärzt*innen, Therapeut*innen und Behandelnde anderer Professionen Probleme und Verbesserungsbedarf? Mit welchen Aspekten der Gesamtversorgung sind sie zufrieden?

Arbeitshypothesen: Die Perspektiven hinsichtlich Rolle und Verantwortung in der Betreuung der SMA Patient*innen unterscheidet sich zwischen Muskelzentren und Ärzt*innen, Therapeut*innen und Behandelnden vor Ort. Während die Mitarbeiter*innen am Muskelzentrum über viel Erfahrung und Expertise verfügen, sind die Behandelnden vor Ort besser mit den lokal verfügbaren Behandlungs- und Fördermöglichkeiten sowie der familiären Situation vertraut. Eine gute Zusammenarbeit wird von allen Seiten als wichtig erachtet. Neben zeitnah verschickten Arztberichten wird der persönliche unkomplizierte, telefonische Austausch als wertvoll erachtet.

3.5.Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements

Wir führten eine explorative, prospektive, kontrollierte, zweiarmige Studie (Prä-, Post- und Follow-Up-Messung; T0-T2) inklusive Prozess- und Ergebnisevaluation durch, um die Auswirkungen einer Case-Management-Intervention im Hinblick auf ihre Akzeptanz und Machbarkeit (Prozessevaluation), die primären und sekundären Endpunkte (Ergebnisevaluation) sowie ihre direkten und indirekten Kosten (gesundheitsökonomische Evaluation) zu bewerten. Primäre Endpunkte waren die gesundheitsbezogene Lebensqualität (GLQ) der betroffenen Eltern sowie die elterlich bewertete Qualität der

Behandlungsintegration. Sekundärer Endpunkt war die GLQ des Kindes. Es kamen quantitative und qualitative Messmethoden zum Einsatz.

3.5.1. *Prozessevaluative Forschungsfrage*

- (1) Wie verändert sich die Wahrnehmung der Case-Management-Intervention (Akzeptanz und Machbarkeit) über die Zeit?

Arbeitshypothese: Die Anfangszeit, die notwendig ist, um sich mit dem System vertraut zu machen, wird als kritisch erachtet, da die Eltern teilweise schon lange mit der Diagnose leben und innerhalb des Versorgungsmanagements routiniert sind. Nach einer Eingewöhnungsphase wird das Case Management insgesamt als hilfreich erlebt, wobei es konkrete Anknüpfungspunkte benötigt, um den tatsächlichen Nutzen für den eigenen Alltag zu erkennen.

3.5.2. *Ergebnisevaluative Forschungsfragen*

Folgende Forschungsfragen galten hinsichtlich der primären Endpunkte, bezogen auf die Elternperspektive:

- (1) Wie verändert sich die Qualität der Behandlungsintegration nach Einführung des Case Managements?
- (2) Wie verändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität der Eltern nach Einführung des Case Managements?
- (3) Wie verändern sich die Qualität der Behandlungsintegration und die gesundheitsbezogene Lebensqualität in der Vergleichsgruppe?

Arbeitshypothesen: Das Case Management hat einen positiven Einfluss auf die elterlich bewertete Behandlungsintegration und die gesundheitsbezogene Lebensqualität der Eltern. Im Vergleich zwischen Interventions- und Kontrollgruppe nehmen die Qualität der Behandlungsintegration und die gesundheitsbezogene Lebensqualität in der Interventionsgruppe in stärkerem Maße zu.

Folgende Forschungsfragen galten hinsichtlich des sekundären Endpunkts, bezogen auf die Gesundheit des Kindes:

- (1) Wie verändert sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität der Kinder nach Einführung des Case Managements?

Arbeitshypothese: Das Case Management hat einen positiven Einfluss auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität der Kinder.

3.5.3. *Gesundheitsökonomische Forschungsfrage*

- (1) Welche Kosten entstehen im Rahmen der Case-Management-Intervention? In welchem Verhältnis stehen diese Interventionskosten zu den informellen Kosten der Koordinationsarbeit durch die Eltern aus Phase 2?

Arbeitshypothesen: Die Interventionskosten pro Stunde sind höher, als die informellen Kosten der Eltern. Durch eine höhere Effizienz des CM (bessere Koordination in kürzerer Zeit im Vergleich zu den Eltern) erscheint eine Implementierung der CM-Intervention in die Regelversorgung jedoch als sinnvoll.

4. Projektdurchführung

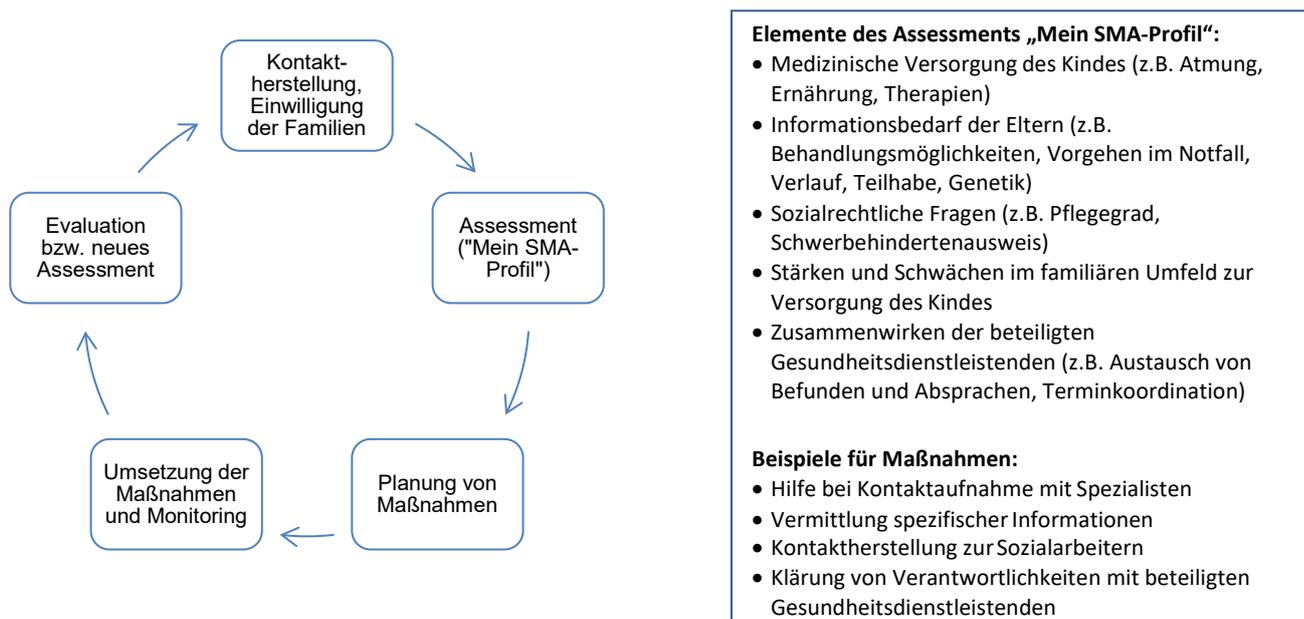
4.1. Intervention: Case Management

Das Konzept der Case-Management-Intervention (im Folgenden: CM-Intervention oder CM) wurde in Anlehnung an etablierte CM-Modelle entwickelt (z.B. CM zur Unterstützung von Familien nach der Entlassung von Frühgeborenen aus dem Krankenhaus) (Porz & Podeswik, 2010; Wendt, 2018). Es ist ein fallorientiertes, interdisziplinäres Versorgungsmodell, das Familien im Rahmen des Versorgungsmanagements unterstützt (Porz, 2006). Es zielt darauf ab, die Patientenzentriertheit der Versorgung zu verbessern und die Eltern in ihrem Versorgungsmanagement zu stärken. Ein*e feste*r Ansprechpartner*in im Versorgungsnetz ist für familienzentrierte Versorgungsorganisation und -koordination zuständig und ermöglicht so eine langfristige Unterstützung sowie eine bedarfsgerechte Vernetzung auf individueller Ebene (Wendt, 2018). Das CM umfasst eine umfassende Bereitstellung von Informationen, die Integration zwischen den multidisziplinären Gesundheitsdienstleistenden der Patient*innen und die Unterstützung der Familie, wobei der Schwerpunkt auf einer qualitativ hochwertigen und kosteneffizienten Versorgung liegt (Gordils-Perez et al., 2017; Löcherbach, 2010; Porz, 2006; Porz & Podeswik, 2010; Simon et al., 2017). Durch die kontinuierliche Verfügbarkeit des CM auch außerhalb geplanter ambulanter Vorstellungen am Muskelzentrum ist es außerdem leichter möglich, auf psychosoziale Belastungen in der Familie einzugehen und bei der Suche nach Entlastungsmöglichkeiten (z.B. Verhinderungspflege) zu helfen.

Der Fokus lag auf der Bewertung der Versorgungssituation zusammen mit den Familien, um Bereiche mit unzureichender Versorgungsqualität und Versorgungsintegration zu identifizieren (Abbildung 2). Bei dem zu evaluierenden CM handelte es sich um eine komplexe Intervention, welche aus mehreren Einzelkomponenten besteht, die interdependent sind und in komplexe Kontexte implementiert werden (Mühlhauser et al., 2011).

Abbildung 2

Fünf Phasen des Case Managements (modifiziert nach Wendt, 2018)



„Mein SMA-Profil“ ist der Name des entwickelten Fragebogens für das regelmäßige Assessment (Anlage 5).

4.1.1. Merkmale der CM-Intervention

Ein Überblick zum CM-Konzept enthält Anlage 6.

Das CM beinhaltet folgende spezifische Elemente:

- Regelmäßige, strukturierte Gespräche mit den Familien über die Gesamtversorgung einschließlich der Organisation von Facharztterminen, der Versorgung mit medizinischen Hilfsmitteln, der Integration des Kindes in vorschulische und schulische Aktivitäten, der Unterstützung der Familie
- Information über (neue) Versorgungsmöglichkeiten inkl. Vermittlung von hilfreichen Kontakten, z.B. Klinik, die Wirbelsäulenoperationen bei Kindern mit SMA durchführt
- Unterstützung bei der Organisation und Koordination von Terminen innerhalb des Muskelzentrums, d.h. Kombination von Terminen bei verschiedenen Spezialisten, um wiederholte Besuche im Muskelzentrum zu vermeiden
- Unterstützung des Informationsaustauschs zwischen Anbietern innerhalb und außerhalb des Krankenhauses, die nicht regelmäßig miteinander kommunizieren, z. B. Physiotherapeuten

Die in Phase 2 durchgeführten Interviews beinhalteten zudem Informationen darüber, welche SMA-spezifischen Aspekte bei einer maßgeschneiderten CM-Intervention eine Rolle spielen:

- Da es sich bei SMA um eine seltene Erkrankung handelt, haben Eltern anfangs nur wenig Wissen über die Krankheit und einen hohen Informationsbedarf, der vor allem in der frühen Phase nach der Diagnosestellung die Einbeziehung einer Vielzahl von Gesundheitsdienstleistenden und Anbietern aus dem nicht-medizinischen Bereich erfordert.
- SMA manifestiert sich früh im Leben eines Kindes und hat schwerwiegende Auswirkungen auf den/die Patient*in und seine/ihre Familie. In dieser Phase brauchen die Familien Kontinuität und Unterstützung. Erfahrene Eltern können jedoch unterschiedliche Bedürfnisse haben, z. B. kann die Versorgungssituation des Kindes medizinisch stabil sein, aber der Schulübergang kann für die Familie eine psychologische Herausforderung darstellen.
- Seit der Zulassung neuer Medikamente stehen die Familien vor herausfordernden Entscheidungen, bei denen sie von der Beratung durch verschiedene Gesundheitsdienstleistende profitieren können (z. B. durch Kinderneurologen, Physiotherapeuten, Psychologen usw.). Bisher erhielten die meisten Patient*innen Nusinersen (Spinraza), das einen dreitägigen stationären Aufenthalt im Muskelzentrum zur Verabreichung erforderte. Mit Onasemnogen-Abeparvovec (Zolgensma) und Risdiplam (Evrysdi) ändert sich die Versorgungssituation: Onasemnogen-Abeparvovec erfordert eine einmalige Verabreichung, der jedoch intensive Voruntersuchungen im Muskelzentrum vorausgehen und die mit einer intensiven Nachsorge während der Folgemonate verbunden ist. Bei der Umstellung von Nusinersen auf die orale Verabreichung von Risdiplam obliegt es den Eltern, das Medikament mit Hilfe eines regulären Rezepts in der Apotheke abzuholen und es zu Hause eigenständig dem/der Patient*in zu verabreichen.

4.2. Implementierung der Intervention

Beim CM handelte sich um ein ergänzendes Angebot, das zusätzlich zu den bisher üblichen stationären oder ambulanten Versorgungsleistungen erbracht wird. Es wurde am Muskelzentrum der Universitätskinderklinik Freiburg eingerichtet. Die Rolle der Case-Managerinnen wurde von zwei Mitarbeiterinnen übernommen, die bereits zuvor in der Klinik tätig waren und über Erfahrungen in der Versorgung und Begleitung der Patient*innengruppe

verfügte. Eine Mitarbeiterin war zuvor als Study Nurse tätig, wodurch sie umfangreiche Erfahrung in der Begleitung von Kindern mit SMA und ihren Familien im Rahmen klinischer Studien sammeln konnte. Sie ist examinierte Kinder- und Gesundheitspflegerin mit Zusatzausbildung der Case-Management-Assistentin. Die zweite Case-Managerin ist Dipl.-Sozialpädagogin, die sowohl im Sozialpädiatrischen Zentrum (SPZ) als auch in der spezialisierten ambulanten Palliativ-Versorgung (SAPV) vielfältige Erfahrungen in der Beratung und Begleitung chronisch-komplex erkrankter Kinder sammeln konnte. Insofern fügte sich das neu zu entwickelnde CM in die bestehenden Strukturen am Standort ein, für die das SPZ sowie der Bereich Klinische Studien von besonderer Bedeutung waren. Bevor das CM implementiert wurde, wurden zwei Symposien veranstaltet, zu denen betroffene Familien, Vorsitzende von Patientenorganisationen und am Versorgungsnetz beteiligte Gesundheitsdienstleistende eingeladen wurden. In diesen Symposien wurden die einzelnen Elemente und das Gesamtkonzept der CM-Intervention diskutiert und finalisiert. Vor allem in der Anfangsphase gab es mehrere Treffen zwischen Case Managerinnen, der Projektleitung und wissenschaftlichen Mitarbeiter*innen zur Optimierung des CM sowie zur Abstimmung der Intervention und der wissenschaftlichen Begleitung.

Es wurden im Rahmen des Projekts keine Schulungen o.ä. angeboten.

4.2.1. Erfahrungen mit der Implementierung

Im Rahmen der Intervention wurde das CM allen Familien von Kindern mit SMA I und II angeboten, die zur Behandlung der SMA bereits regelmäßig nach Freiburg kamen. Insofern bestand bereits ein in der Regel guter und vertrauensvoller Kontakt zu den Familien. Dies erleichterte die Rekrutierung sehr. Gleichzeitig war es etwas aufwändig, die Besonderheiten des neuen Angebotes gegenüber Familien zu kommunizieren, die teilweise schon sehr erfahren in der Versorgung ihrer Kinder waren und sich an die bisherigen Abläufe innerhalb der Klinik gewöhnt hatten. Im Verlauf der zwei Jahre konnte sich das CM zunehmend etablieren. Bei Familien, deren Kinder neu diagnostiziert wurden, wurde das CM insbesondere in der Anfangsphase als sehr hilfreich erlebt. In der Schnittstelle zu den medizinischen Spezialdisziplinen, mit denen das CM interagierte, gab es im Wesentlichen positive Erfahrungen auf allen Seiten. Je nach Häufigkeit des Kontakts zwischen CM und Vertreter*innen der Spezialdisziplinen verlief dieser Kontakt mehr oder weniger routiniert und proaktiv.

4.3. Generelle Erfahrungen mit der Rekrutierung (in allen Phasen)

Es gab z.T. erhebliche Rekrutierungsschwierigkeiten. Mit einer Rekrutierung von:

- N = 204 Eltern chronisch kranker Kinder in Phase 1,
- N = 15 Eltern von Kindern mit SMA I und II für die Betreuungstagebücher in Phase 2; N = 6 Gesundheitsdienstleistenden für die semi-strukturierten Interviews in Phase 2,
- N = 32 Eltern von Kindern mit SMA I und II (IG = 21; KG = 11) in Phase 3,

lag das SMA-C+-Projekt weit hinter den im initialen Projektantrag vorgesehenen Werten von:

- N = 400 Eltern chronisch kranker Kinder in Phase 1,
- N = 20-25 Eltern von Kindern mit SMA I und II für die Betreuungstagebücher in Phase 2; N = 20 Gesundheitsdienstleistenden für die semi-strukturierten Interviews in Phase 2,
- N = 50 Eltern von Kindern mit SMA I und II (IG = 25; KG = 25) in Phase 3.

Faktoren, die die Rekrutierung erschwerten:

- Die generelle intensive Einbindung und Beanspruchung von Eltern chronisch erkrankter Kinder, die im Alltag häufig wenig Zeit lässt (s. auch Abschnitt 6.2.5.).
- Die Studienteilnahmemüdigkeit von Eltern chronisch erkrankter Kinder, die durch ein erhöhtes Aufkommen an versorgungsnaher Forschung durch parallellaufende Forschungsprojekte, z. T. zur selben Thematik, begünstigt wurde.
- Die Zurückhaltung vieler angefragter Gesundheitsdienstleistender mit der Befürchtung, dass aufgrund der seltenen Erkrankung wenig SMA-spezifische Informationen zum Projekt beigetragen werden könnten.
- Potentielle Verantwortungsdiffusion und Rekrutierungsmüdigkeit bei den großen Rekrutierungspartnern.
- Die ab März 2020 durch COVID-19 bedingte Mehrbelastung der Familien (z.B. durch „Homeschooling“/Herausnahme aus dem Kindergarten und/oder größere Vorsicht in Bezug auf Infektionskrankheiten der ohnehin vorbelasteten Kinder).

Gegenmaßnahmen, die die Rekrutierung unterstützten:

- Kostenneutrale Laufzeitverlängerung für das Gesamtprojekt bis 31.07.2022.
- Intensive Unterstützung der Rekrutierungspartner durch Vorbereitung und Versand von Studienmaterial zur schnellen und leichten Verteilung an potentielle Teilnehmende, intensive Einführung in das Projekt (z.B. durch persönliche Treffen und mehrere Meetings/Telefonate).
- Teilnahme an Kongressen, (z.B. Kongress für Kinder- & Jugendmedizin) und zusätzliches Anschreiben/Ansprechen von infrage kommender Gesundheitsdienstleistender (außerhalb von Rekrutierungsvorschlägen durch beteiligte Familien).
- Einbindung von Pflegepersonal verschiedener Stationen des Universitätskinderklinikums Freiburg zur Rekrutierungsunterstützung.
- Erweiterung der Rekrutierungsunterstützung durch Kontaktierung der Universitätskinderklinik in Tübingen sowie der Patientenorganisation „Kindernetzwerk Deutschland“.
- Rekrutierungsintensivierung durch Einstellung einer wissenschaftlichen Hilfskraft, die Teilnehmende über persönliche Ansprachen auf einzelnen Stationen der Universitätskinderklinik Freiburg sowie durch E-Mail- und Telefonkontakt ansprach und begleitete.

5. Methodik

5.1. Studiendesign

Diese Studie wurde vom Universitätsklinikum Freiburg (Abteilung für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen und Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung) durchgeführt. Es wurde ein Mixed-Methods-Design gewählt, bei dem quantitative und qualitative Methoden für die Datenerhebung und -analyse zum Einsatz kamen. Das Studiendesign war abhängig von der jeweiligen Studienphase. Die Interventionsstudie (Phase 3) hatte ein exploratives, prospektives, kontrolliertes, zweiarmliges Studiendesign (Prä-, Post- und Follow-Up-Messung) und beinhaltete eine Prozess- und Ergebnisevaluation sowie eine gesundheitsökonomische Evaluation. Die Interventionsgruppe erhielt die Case-Management-Intervention, die Kontrollgruppe erhielt die derzeitige Regelversorgung, die dem Behandlungsstandard entsprach (Wang et al., 2007).

5.2. Zielpopulation

Wenn ein Kind an SMA erkrankt, hat das weitreichende Auswirkungen auf das Leben der Eltern. Die Eltern übernehmen oft eine große Verantwortung bei der häuslichen Pflege und Behandlungscoordination ihres Kindes (Brandt et al., 2022). Die Anforderungen der Pflege, der Umgang mit der progredienten Erkrankung sowie das Versorgungsmanagement beeinflussen das emotionale und soziale Leben der gesamten Familie und führen zu verschiedenen psychosozialen und finanziellen Herausforderungen (Altman et al., 2018; Finkel et al., 2018; Groen et al., 2018; Hjorth et al., 2018; Rallison & Raffin-Bouchal, 2013; Wang et al., 2007). Der Schweregrad der Herausforderungen variiert je nach Phänotyp der SMA; Eltern von Kindern mit SMA I berichteten über die schwersten psychosozialen Auswirkungen (Qian et al., 2015). Darüber hinaus stehen Eltern von Kindern mit SMA oft vor schwierigen Entscheidungen, die die Lebensqualität und -dauer ihres Kindes beeinflussen können. Zu diesen Entscheidungen gehören Versorgungsoptionen, wie Sondenernährung, kontinuierliche Beatmung (Pechmann et al., 2018), medizinische Behandlung usw. Neben dem hohen dynamischen Versorgungsbedarf der Kinder besteht zudem Unklarheit über den richtigen Zeitpunkt der Interventionen, um den gewünschten therapeutischen Effekt zu erzielen. Präklinische und klinische Daten bringen den frühestmöglichen Einsatz von Maßnahmen mit besseren Ergebnissen in Verbindung (Parente & Corti, 2018). Dieser daraus resultierende Handlungsdruck erhöht die Herausforderungen für die Familien, während die langfristigen Folgen ungewiss bleiben (Beernaert et al., 2019). Das im Rahmen dieses Projekts konzipierte Case Management fokussiert eine Unterstützung und Entlastung der Eltern von Kindern mit SMA I und II innerhalb der Versorgung ihres Kindes. Im Rahmen der sekundären Endpunkte wird außerdem die gesundheitsbezogene Lebensqualität der betroffenen Patient*innen adressiert.

5.3. Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS)

5.3.1. Teilnehmende und Rekrutierung

Wir rekrutierten bundesweit N = 204 Eltern aus den Universitätskinderkliniken Freiburg und Essen sowie durch mehrere Sozialpädiatrischen Zentren (SPZ). SPZ sind interdisziplinäre Ambulanzen, die eine fachübergreifende Versorgung von Kindern mit komplexen Gesundheitsbedürfnissen anbieten. Die teilnehmenden SPZ befanden sich in Bochum, Bremen, Celle, Freiburg, Lübeck, Rotenburg (Wümme) und Stuttgart. Die Eltern wurden durch Gesundheitsdienstleistende individuell angesprochen und erhielten den Papierfragebogen sowie die Studieninformation. Zusätzlich lud die Patientenorganisation „Kindernetzwerk Deutschland“ auf ihrer Website zur Teilnahme ein. Das „Kindernetzwerk“ vertritt die pädiatrischen Patientenorganisationen in Deutschland. Potenziell Teilnehmende konnten direkt Kontakt mit der Studienorganisation aufnehmen und erhielten einen Papierfragebogen und die Studieninformation auf dem Postweg. Alle Eltern erteilten ihre schriftliche Einwilligung zur Teilnahme. Für eine Teilnahme erhielten die Eltern eine Aufwandsentschädigung von 20 €.

Ein- und Ausschlusskriterien

Einschlusskriterien: Patient*innen wurden als chronisch krank eingestuft, wenn mindestens eines der folgenden Kriterien erfüllt war: regelmäßige Einnahme von Medikamenten, regelmäßige Anwendung von Therapien, Verwendung von Hilfsmitteln, regelmäßige Beratung oder Psychotherapie.

Ausschlusskriterien: Kein chronisch krankes Kind gemäß der Definition, eingeschränkte Deutschkenntnisse oder die Teilnahmeverweigerung des/der Patienten/Patientin bzw. des Elternteils.

5.3.2. Datenerhebung

5.3.2.1. Überblick über den originalen Pediatric Integrated Care Survey

Der Fragebogen zur pädiatrischen Behandlungsintegration wurde 2013 vom Bostoner Kinderkrankenhaus im Rahmen von Fokusgruppen und Interviews entwickelt (Antonelli, 2015). Teilnehmende waren Eltern chronisch erkrankter Kinder, an deren Behandlung mehrere Anbieter aus dem medizinischen und nicht-medizinischen Bereich beteiligt waren. Die englische Originalversion des PICS hat gut etablierte psychometrische Eigenschaften (Ziniel et al., 2016). Der Fragebogen besteht aus 19 validierten (hauptsächlich Likert-skalierten) Kernitems, die fünf Skalen bilden (z. B. Access to care, Family impact, and Team functioning/performance/quality/connectivity). Ein Beispielitem der Skala "Family impact" lautet wie folgt: "In the past 12 months, how often have your child's care team members talked with you about how healthcare decisions for your child will affect your whole family?". Die sechsstufige Antwortskala reicht von „nie“ bis „immer“. Es wird ein 12-monatiger Referenzzeitraum zur Bewertung der Behandlungsintegration vorgeschlagen. Es gibt zusätzliche Items, die aufgrund der begrenzten Stichprobengröße nicht psychometrisch geprüft wurden sowie begleitende Fragen zur Soziodemographie und zum Gesundheitszustand des Kindes (Ziniel et al., 2016). Die Zusatzitems sind in so genannten "Modules" und "Supplementary question topics" gruppiert. Die Urheber des Fragebogens empfehlen, je nach Anwendungsschwerpunkt zusätzlich zu den validierten Kernitems Items aus dem Set der Zusatzfragen auszuwählen (Antonelli, 2015).

5.3.2.2. Übersetzung, Anpassung und Pilotierung

Die Übersetzung der ursprünglichen PICS-Items folgte den sechs Schritten der „Functional Assessment of Chronic Illness Therapy Translation Procedures and Guidelines“ (FACIT): Zunächst übersetzten zwei deutsche Muttersprachler*innen das Instrument unabhängig voneinander ins Deutsche. Ein*e dritte*r deutsche*r Muttersprachler*in überprüfte die Übersetzungen und erstellte eine vorläufige Version. Ein*e englische*r Muttersprachler*in übersetzte die vorläufige Version dann wieder ins Englische. In weiteren Schritten wurden die verschiedenen Versionen von zweisprachigen, methodischen Experten bewertet und diskutiert. In der abschließenden Revision wurde das übersetzte Instrument von einem/einer zweisprachigen Experten/Expertin orthografisch überprüft (Eremenco et al., 2005). Der PICS musste zudem für die Beurteilung der Behandlungsintegration in Deutschland modifiziert werden, da viele Items einen thematisch engen Bezug zum amerikanischen Gesundheitssystem hatten. Im Folgenden werden die Modifikationen der ursprünglichen, englischen Kernitems beschrieben. Die Zuordnung der Originalitems sowie ihre jeweilige Nummerierung finden sich im PICS „User Manual“ (Antonelli, 2015). Zur Pilotierung des Fragebogens wurden kognitive semi-strukturierte Interviews durchgeführt, um das Verständnis des Wortlauts und die Angemessenheit der Items der vorläufigen PICS-D-Version aus der Perspektive der Eltern zu beurteilen (Willis, 2004). Zu diesem Zweck rekrutierten wir N = 10 Eltern chronisch erkrankter Kinder im Muskelzentrum Freiburg. Nach sieben Interviews überarbeiteten wir ausgewählte Items basierend auf den Rückmeldungen der Eltern. Anschließend führten wir drei weitere kognitive Interviews durch. Die meisten Änderungen ergaben sich aus der Notwendigkeit, den Wortlaut sprachlich zu vereinfachen oder Informationen (konkrete Beispiele) zur Verdeutlichung hinzuzufügen. Um sicherzustellen, dass die ursprünglich beabsichtigte Bedeutung des Wortlauts eines Items erhalten blieb, fanden in regelmäßigen Abständen Beratungsgespräche mit den Autoren der Originalversion statt. Die kognitiven Interviews wiesen zudem darauf hin, dass die Formulierung

„Behandlungsteam“ ungeeignet zu sein schien. Den Eltern fiel es schwer, zwischen den Konzepten eines „festen Teams“ (kontinuierlich zusammenarbeitende Einheit) und eines Teams, das sich aus unterschiedlichen Verantwortlichkeiten innerhalb der Behandlung des Kindes ergibt, zu unterscheiden. Sie berichteten, dass es bei der Behandlung ihrer Kinder kein „festes Team“ gab. Aus diesem Grund ergänzten wir eine Instruktion, die das „Behandlungsteam“ als alle Personen definiert, die in den vergangenen 12 Monaten zum Zeitpunkt der Erhebung an der Versorgung des chronisch kranken Kindes beteiligt waren. Um weitere Schwierigkeiten mit der Begrifflichkeit zu vermeiden, wählten wir das Wort "Versorgungsnetz" (statt „Behandlungsteam“). Nach Fertigstellung des Fragebogens diskutierten wir die PICS-D mit den ursprünglichen Autoren per Videokonferenz. Die endgültige Version enthielt 19 Kernitems zu Erfahrungen, einen soziodemographischen und gesundheitsbeschreibenden Teil mit insgesamt 32 Items und ein offenes Item. Tabelle 1 zeigt die finalen 19 Kernitems der deutschen PICS-Version (PICS-D). Des Weiteren ist der PICS-D sowie Auswertungshinweise als Anlage beigefügt (PICS-D: Anlage 1a; Skalenbildung PICS-D: Anlage 1b).

Tabelle 1

Wortlaut der finalen Kernitems des PICS-D

Itemnr. im originalen PICS	Item-Wortlaut
13**	Hatten alle Behandelnden Zugang zu den für sie wichtigen medizinischen Unterlagen (z.B. Arztbriefe)? Wie ist Ihre Einschätzung?
17*	Wie oft hatten Sie Schwierigkeiten bzgl. medizinischer oder sozialer Dienste (z.B. Therapien, Integrationshilfe etc.), weil es Wartelisten oder andere Probleme bei der Terminvergabe gab?
18*	Wie oft hatten Sie Schwierigkeiten bzgl. medizinischer oder sozialer Dienste (z.B. Therapien, Integrationshilfe etc.), weil Sie nicht wussten, wer der richtige Ansprechpartner ist?
22*	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Ihnen Dinge so erklärt, dass Sie sie verstehen konnten?
23*	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Behandlungsempfehlungen zwischen den Mitgliedern des Versorgungsnetzes weitergegeben wurden?
24*	Manchmal haben Eltern Bedenken zur Gesundheit und Versorgung Ihres Kindes. Wie oft ist es Ihnen leicht gefallen, den Mitgliedern des Versorgungsnetzes Ihre Bedenken mitzuteilen?
25*	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Sie von den Mitgliedern des Versorgungsnetzes gehört wurden, wenn Sie etwas über die Gesundheit Ihres Kindes zu sagen hatten?
26*	Wie oft wurde mit Ihnen besprochen, wer für die verschiedenen Bereiche der Versorgung Ihres Kindes verantwortlich ist?
27*	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes über alle Tests und Untersuchungen Ihres Kindes informiert waren, um unnötige Untersuchungen zu vermeiden?
28*	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes ihre Aufgaben in der Versorgung Ihres Kindes erfüllten?
29*	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes bei der Betreuung Ihres Kindes seine Gesamtsituation berücksichtigt haben, d.h. alle Bedürfnisse Ihres Kindes?
30**	Haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes kurzfristige Behandlungsziele für Ihr Kind gesetzt, d.h. Ziele bis zu 6 Monaten in der Zukunft?
31**	Haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes langfristige Behandlungsziele für Ihr Kind gesetzt, d.h. Ziele, die 6 Monate oder länger in der Zukunft liegen?

32*	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Sie als vollwertige/n Partner/in behandelt?
33*	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen darüber gesprochen, wie sich Entscheidungen über die Versorgung Ihres Kindes auf Ihre ganze Familie auswirken werden?
34*	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen über Belastungen gesprochen, die sich für Sie durch die Erkrankung Ihres Kindes ergeben können?
35*	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Situationen angesprochen, die es Ihnen schwer machen können, sich um die Gesundheit Ihres Kindes zu kümmern (z.B. Arbeit, eigene Krankheit etc.)?
36*	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes angeboten, mit Ihnen auf andere Weise als durch einen persönlichen Besuch zu kommunizieren (z.B. Telefon, E-Mail oder Skype), wenn keine körperliche Untersuchung erforderlich war?
37*	Wie oft haben Ihnen die Mitglieder des Versorgungsnetzes die Möglichkeit angeboten, mit anderen betroffenen Familien in Kontakt zu treten?

*Itemskala von 1 - 6: 1 = „niemals“; 2 = „selten“; 3 = „manchmal“; 4 = „normalerweise“; 5 = „fast immer“; 6 = „immer“; **Zusätzliche Items: nicht in die Auswertung einbezogen, zwei Antwortmöglichkeiten: „ja“, „nein“

5.3.2.3. Analysen der psychometrischen Prüfung

Die Datenerhebung fand zwischen März 2019 und Mai 2020 statt. Die bei der psychometrischen Prüfung des PICS-D angewandten statistischen Methoden beruhen auf den in der Originalpublikation beschriebenen Verfahren und wurden durch die Analyse zusätzlicher psychometrischer Eigenschaften ergänzt (Ziniel et al., 2016). Die Originalautoren empfahlen zur Auswertung ein sog. Top/Bottom-Box-Scoring (Antonelli, 2015). Die Top/Bottom-Boxen sind die höchsten und niedrigsten Bewertungen (= positivste/negativste Bewertung) auf einer Antwortskala. Bei der Auswertung wird das Item in eine binäre Variable „transformiert“. Der Befragte erhält einen Kästchenwert von 1, der anzeigt, dass er/sie die wünschenswerte Antwort (positivste/negativste Antwort) angekreuzt hat. Im Gegensatz dazu haben wir die Items nicht dichotomisiert und die Items als intervallskalierte Variablen betrachtet. Damit sollten alle vorhandenen Informationen möglichst differenziert erfasst werden. Die Originalautoren weisen darauf hin, dass die von ihnen empfohlene Auswertungsmethode primär der Kommunikation von Qualitätsverbesserungen an Einrichtungen/Personen im Gesundheitswesen dient, was nicht der primäre Endpunkt unserer Studie war. Im Rahmen von Phase 1 wurden die Verteilungseigenschaften, die strukturelle Validität und die interne Konsistenz der Items des PICS-D bewertet. Wir führten deskriptive Analysen der Stichprobe mit IBM SPSS Statistics (Version 27) durch und verwendeten R (Version 4.0.3) für Faktorenanalysen (R Foundation for Statistical Computing, 2020).

Aufgrund der inhaltlichen Anpassung der PICS-D verzichteten wir auf eine konfirmatorische Prüfung der Faktorenstruktur der ursprünglichen PICS. Stattdessen führten wir zwei explorative Faktorenanalysen (EFA; Extraktionsmethode: „principal axis factoring“ nach „direct oblimin rotation“) durch, um Konstrukte zu identifizieren, die den Erfahrungen mit der Behandlungsintegration in deutschen pädiatrischen Einrichtungen zugrunde liegen. Der Kaiser-Mayer-Olkin (KMO) Koeffizient und der Bartlett Sphärizitätstest wurden verwendet, um die Eignung der Daten für die EFA zu analysieren. Die Anzahl der beibehaltenen Faktoren wurde nach inhaltlichen und statistischen Kriterien (Kaiser-Guttman-Kriterium, Eigenwert > 1) bestimmt. In die erste EFA wurden 16 Likert-skalierte Erfahrungsisems aufgenommen. Wir schlossen drei Items zur Zielsetzung und zum Zugang zu medizinischen Unterlagen (die ursprünglichen Items 13, 30 und 31) aus, da die Antwortskala von einer Likert-Skala abwich (z. B. Ja/Nein-Antwortformat). In die zweite EFA wurden 13 Likert-skalierte Items aufgenommen (weitere drei Items wurden im Laufe der Analyse aufgrund unzureichender Kennwerte

ausgeschlossen). Antwortmöglichkeiten wie "Ich weiß nicht" oder "Ich hatte keine Bedenken" wurden als fehlende Werte rekodiert (z.B. bei folgendem Item: „Manchmal haben Eltern Bedenken zur Gesundheit und Versorgung Ihres Kindes. Wie oft ist es Ihnen leicht gefallen, den Mitgliedern des Versorgungsnetzes Ihre Bedenken mitzuteilen?“). Da die erste EFA in erster Linie dazu diente, eine explorative Unterstützung für die Auswahl der Items zu liefern, werden in diesem Abschlussbericht nur die Ergebnisse der zweiten EFA im Detail dargestellt.

Zur weiteren Analyse der PICS-D-Struktur wurden zwei konfirmatorische Faktorenanalysen (CFA) mit konfirmatorischen, auf der klassischen Testtheorie basierenden Modellen durchgeführt. Jede CFA folgte auf eine bereits durchgeführte EFA (Ablauf: 1. EFA, 1. CFA, 2. EFA, 2. CFA). Die erste CFA nutzten wir, um statistische Kriterien zum Ausschluss weiterer Items zu erhalten. Die zweite CFA testete die Güte der endgültigen Faktorenstruktur. Globale Anpassungsmaße zeigten die Diskrepanz zwischen den Daten und dem hypothetischen Modell an (CFI, TLI, RMSEA) (Hooper et al., 2008; Hu & Bentler, 1999). Eine unzureichende Modellpassung kann auf eine Verletzung der Eindimensionalität (d. h. ein Item, das nicht mit dem zugrundeliegenden Konzept in Verbindung steht) oder auf eine unzureichende Reliabilität der Items hinweisen. Um die beste dimensionale Struktur zu ermitteln, führten wir die CFAs für jeden Faktor sowie für das gesamte Modell durch. Darüber hinaus untersuchten wir die interne Konsistenz jedes Faktors mittels Cronbachs α und McDonalds ω -Koeffizient.

5.4.Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II

5.4.1. *Teilnehmende und Rekrutierung*

Wir befragten N = 21 Eltern, deren Kinder eine genetisch bestätigte SMA (Typ I oder Typ II) hatten in semi-strukturierten Interviews. Insgesamt N = 15 dieser teilnehmenden Eltern füllten zusätzlich das Betreuungstagebuch aus. Die Teilnahme war unabhängig vom Krankheitsverlauf des Kindes, d.h. eine Aufnahme in Phase 2 der Studie war unmittelbar nach Diagnosestellung oder zu einem späteren Zeitpunkt möglich. Wir rekrutierten Eltern, deren Kinder in einem der folgenden Muskelzentren behandelt wurden: dem Zentrum für Neuromuskuläre Erkrankungen in Freiburg, dem Essener Zentrum für Seltene Erkrankungen und der Abteilung für Kinderheilkunde III in Tübingen. Die Auswahl der Teilnehmer erfolgte nach dem Maximum-Variation-Sampling-Ansatz (purposeful sampling) und orientierte sich an kontrastierenden Merkmalen wie Alter des/der Patienten/Patientin, Gesundheitszustand/Stadium der Erkrankung, familiäre Situation, geografische Lage und Deutschkenntnisse. Potenzielle Teilnehmer wurden kontinuierlich durch persönlichen Kontakt mit den behandelnden Neuropädiater*innen in den neuromuskulären Zentren identifiziert und rekrutiert. Die Eignungskriterien wurden während des Rekrutierungsprozesses kontrolliert.

Um zusätzliche Informationen aus der Perspektive von Gesundheitsdienstleistenden (z.B. niedergelassene Kinderärzt*innen, Therapeut*innen) zu erhalten, wurden N = 6 Behandelnde unterschiedlicher Fachrichtungen rekrutiert. Zur Ermittlung der entsprechenden Personen, wurden die teilnehmenden Eltern des Muskelzentrums Freiburg gebeten, die Kontaktdaten des Gesundheitsdienstleistenden anzugeben, der am meisten in die Versorgung ihrer Kinder involviert war. Es wurde eine Vereinbarung unterzeichnet, die diese Person von ihrer ärztlichen Schweigepflicht entband. Ausgewählte Gesundheitsdienstleistende wurden durch persönlichen Kontakt über Neuropädiater*innen in den Muskelzentren rekrutiert. Die Gesundheitsdienstleistenden erhielten für die Teilnahme an einer Befragung eine Aufwandsentschädigung von 75 €. Mögliche Interviewpartner wurden durch Hinweise der Familien identifiziert und von der Schweigepflicht entbunden. Es wurde auf eine möglichst große Variabilität in Hinblick auf Profession, Behandlungszeitraum und Region geachtet.

Alle Teilnehmenden erteilten ihre schriftliche Einwilligung zur Teilnahme, einschließlich der Aufzeichnung und Weiterverarbeitung ihres Interviews.

Ein- und Ausschlusskriterien

*Einschlusskriterien für die teilnehmenden Eltern/Patient*innen:* Eltern von Patient*innen mit SMA I und II; mindestens zwei Gesundheitsdienstleistende müssen an der Versorgung der Patient*innen beteiligt sein

Einschlusskriterien für die teilnehmenden Gesundheitsdienstleistenden: am meisten in die Versorgung des Kindes involvierter Gesundheitsdienstleistende

Ausschlusskriterien für die Teilnahme (Eltern und Gesundheitsdienstleistende): Einschlusskriterien nicht erfüllt oder die Teilnahmeverweigerung des/der Patienten/Patientin bzw. des Elternteils

5.4.2. Entwicklung der Interviewleitfäden

Die Interviewleitfäden (Anlage 3a, Anlage 3b) zur Durchführung der semi-strukturierten Interviews wurden in Anlehnung an Helfferich (Helfferich, 2019) verfasst und nach Überprüfung durch das gesamte Team finalisiert. Theoretische Überlegungen zur Entwicklung der Interviewleitfäden basieren auf der „Lebensverlaufsperspektive“ (engl.: Life course approach; Fine & Hampton, 2019). Diese ist geeignet, da sie sich auf vorhersehbare Transitionen im Leben von Patient*innen, den familiären Kontext sowie die Aspekte Stress und Resilienz fokussiert.

Wir unterteilten den Leitfaden in drei verbindliche Hauptabschnitte zu den Themen (a) „Allgemeine Erfahrungen bei der Versorgung eines Kindes mit der Diagnose SMA I oder II“, (b) „Erfahrungen im Versorgungsnetz“, (c) „Erfahrungen mit der Behandlungskoordination“. Jeder Abschnitt enthielt ein bis drei offene, obligatorische Kernfragen und mehrere optionale Fragen, die die wichtigsten Aspekte des jeweiligen Themas zusammenfassten. Die Befragten durften frei über ihre Erfahrungen berichten; Fragen wurden nur dann gestellt, wenn die Teilnehmer keine relevanten Aspekte zu den Kernthemen vorschlugen. Individuelle Abweichungen von der Formulierung und der Reihenfolge der Kernfragen waren möglich und durch die Teilnehmenden eingebrachte Themen wurden berücksichtigt.

5.4.3. Durchführung der semi-strukturierten Interviews und Transkription

Eine Psychologin des Projektteams mit Erfahrung in Beratungs- und Gesprächstechniken führte die Einzelinterviews zwischen August 2019 und April 2020 anhand des entwickelten Leitfadens durch. Die semi-strukturierten Interviews mit rekrutierten Eltern fanden entweder zum Zeitpunkt des regulären stationären Aufenthalts der SMA-Patient*innen oder per Telefon statt. Die semi-strukturierten Interviews mit rekrutierten Gesundheitsdienstleistenden fanden ausschließlich per Telefon statt. Abgesehen von einem kurzen telefonischen Kontakt zur Vereinbarung des Interviewtermins kannte die Interviewerin die Teilnehmenden im Vorfeld nicht.

Alle Interviews wurden mit Einverständnis der Teilnehmenden digital aufgezeichnet. Die Audioaufnahmen wurden von einem externen Transkriptionsdienstleister (amanu GmbH) transkribiert. Personenbezogene Daten wurden im Verlauf der Transkripterstellung pseudonymisiert. Die Transkripte wurden nicht an die Teilnehmenden zur Kommentierung oder Korrektur zurückgegeben. Abbildung 3 visualisiert den Studienverlauf für teilnehmende Eltern in Phase 2. Abbildung 4 visualisiert den Studienverlauf für teilnehmende Gesundheitsdienstleistende in Phase 2.

Abbildung 3

Flussdiagramm teilnehmender Eltern in Phase 2

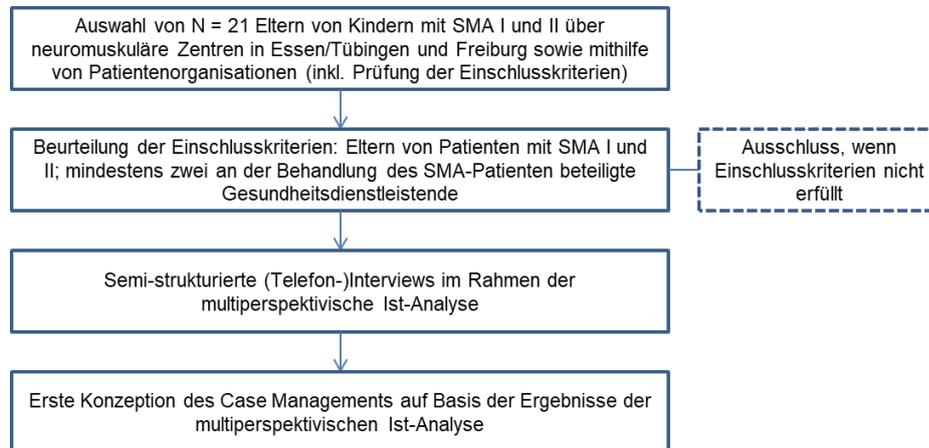
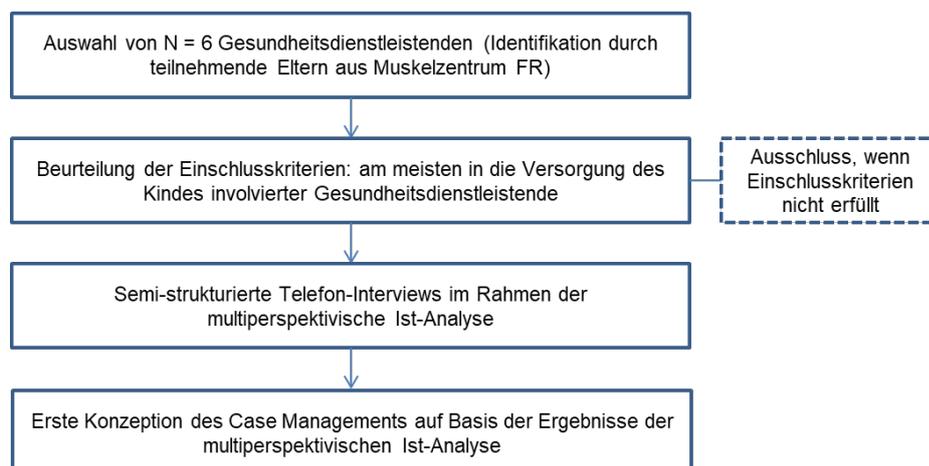


Abbildung 4

Flussdiagramm teilnehmender Gesundheitsdienstleistender in Phase 2



5.4.4. Analysen zur Auswertung der semi-strukturierten Interviews

Die Transkripte der Interviews wurden mit Hilfe der qualitativen Inhaltsanalyse analysiert, die sich weitgehend auf den Ansatz von Kuckartz (Kuckartz, 2018) stützte. Zur Erstellung eines Codesystems wurde ein deduktiv-induktiver Ansatz verwendet. Um die intersubjektive Nachvollziehbarkeit zu gewährleisten, wurden der Codesystem sowie der Leitfaden vom gesamten Projektteam überprüft und gemäß Rückmeldungen angepasst. Das gewählte mehrstufige Auswertungsverfahren wird im Folgenden skizziert: (a) Das transkribierte Textmaterial wurde intensiv gelesen und pseudonymisiert. Es wurden kurze Fallzusammenfassungen verfasst. (b) Anhand der Fallzusammenfassungen wurden induktiv Codes extrahiert. Im nächsten Schritt wurden zusätzliche Codes deduktiv gemäß der Forschungsfrage, dem Interviewleitfaden und der bisherigen Forschung zu Komponenten der Behandlungscoordination abgeleitet (Gittel, 2006; Van Houdt et al., 2013, 2014; Walton et al., 2020). (c) Dieses primäre Codesystem wendeten wir auf eine Quotenstichprobe an, die aus 20% des Datenmaterials bestand (Interviews mit Eltern: $n \approx 5$; Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden: $n \approx 1$). Dabei wurden die Codes durch kontinuierliche Reflexion mehrfach verfeinert und in Haupt- sowie Subcodes eingeteilt. (d) Anschließend begannen wir mit der ersten Kodierung des gesamten Materials mit Hilfe des bis dahin festgelegten

Codesystems. Die Codes wurden bei Bedarf nochmals überarbeitet, z.B. zusammengefasst oder in weitere Sub-Codes differenziert. (e) Zusätzlich bearbeitete eine weitere Projektmitarbeiterin fünf zufällig ausgewählte Interviewtranskripte beider Befragungsgruppen auf der Grundlage des entwickelten Codesystems. Unstimmigkeiten in der Kodierung wurden diskutiert und das endgültige Codesystem von 7 Hauptcodes und 12 Subcodes wurde im konsentiert. (f) Dieses endgültige Codesystem wurde auf alle Transkripte angewendet. Der Prozess der (Sub-)Codebildung erfolgte iterativ, bis eine akzeptable Trennschärfe und Tiefe der Kategorien erreicht war. (g) Im nächsten Schritt wurden alle Aussagen eines Teilnehmenden, die demselben Code zugeordnet waren paraphrasiert. Die Gesamtergebnisse wurden aus einer Code x Teilnehmenden-Zusammenfassungs-Matrix extrahiert.

Das Datenmanagement sowie die Datenanalyse erfolgte mit der qualitativen Datenanalysesoftware MAXQDA Plus 2020 (Version 20.0.3). Die quantitativen, deskriptiven Informationen der teilnehmenden Eltern wurden mit IBM SPSS Statistics (Version 27) berechnet. Die einzelnen Interviews dauerten zwischen 11 und 56 Minuten.

5.4.5. *Entwicklung der Betreuungstagebücher*

Das Betreuungstagebuch wurde in Anlehnung an das „Care Coordination Measurement Tool“ (CCMT) konzeptualisiert, welches am Boston Children’s Hospital entwickelt wurde (McDonald et al., 2012). Während das CCMT ein Instrument zur Fremdbeurteilung des patienten-/elternseitigen Koordinationsaufwands durch medizinische Fachkräfte darstellt, ist das im Rahmen dieses Projekts entworfene Betreuungstagebuch zur Selbstbeurteilung durch die Familien ausgerichtet. Mit Hilfe dieses tabellarischen Dokumentationsbogens dokumentierten die rekrutierten Eltern über einen Zeitraum von vier Wochen welche Koordinationstätigkeit sie ausgeübt haben, wie viel Zeit diese in Anspruch genommen hat (in Minuten), die Zufriedenheit mit dem Ergebnis der Tätigkeit (nach Schulnoten: 1 = sehr gut bis 6 = unbefriedigend) sowie potentielle Verbesserungsmöglichkeiten und die Möglichkeit der Delegation an eine andere Person. Unter Koordinationstätigkeiten wurden solche verstanden, die direkt mit der Organisation und dem Management der Versorgung des Kindes zusammenhängen. Durch die Angabe von variierenden Beispielitems (z.B. Fahrt zur Physiotherapie) wurde sichergestellt, dass die Teilnehmenden lediglich die Aktivitäten notierten, die sie selbst innerhalb der Versorgungskoordination und Behandlungsintegration übernommen haben. Das Betreuungstagebuch ist als Anlage 2 beigefügt.

5.4.6. *Analysen zur Auswertung der Betreuungstagebücher*

Die Betreuungstagebücher wurden statistisch deskriptiv ausgewertet. Eine Mitarbeiterin des Projektteams digitalisierte die Betreuungstagebücher und legte eine Tabelle der Rohdaten in MS Excel 2016 an. Anschließend erfolgte eine grobe Selektion der Koordinationstätigkeiten im Sinne der o.g. Definition. Dabei wurden Tätigkeiten ausgeklammert, die nicht direkt mit der Versorgungskoordination in Verbindung standen (z.B. Laternen basteln). Des Weiteren wurde eine zusammenfassende Kategorienbildung ähnlicher Koordinationstätigkeiten (z.B. Terminkoordination) durchgeführt. Innerhalb dieser Kategorien wurde zusätzlich zwischen einzelnen Professionen aus dem medizinischen und nicht-medizinischen Bereich unterschieden, auf welche sich die koordinativen Tätigkeiten bezogen (z.B. Terminkoordination im Muskelzentrum). Im Rahmen dieser „Koordinationstätigkeit x Professions-Matrix“ wurden folgende Kennwerte bestimmt (einzeln für jede Profession und zusammenfassend für jede Koordinationstätigkeit): Häufigkeit der Nennungen, Mittelwert der Tätigkeitsdauer, Mittelwert der Schulnote.

Die Kosten durch informelle Leistungen der Familie i.S. koordinativer Tätigkeiten und Betreuung werden nach zeitlichem Aufwand ermittelt und für einen ausgewählten Zeitraum

von 4 Wochen mit Hilfe der entwickelten Betreuungstagebücher erfasst. Die von den Eltern geleisteten informellen Leistungen wurde als „Zeit von Pflegepersonal, das medizinische/organisatorische Leistungen erbringt“ bewertet und stellt somit einen Verlust an regulärer Arbeitszeit/Freizeit dar. Die Umrechnung in monetäre Kosten erfolgt entsprechend des Anstellungsverhältnisses des jeweiligen Elternteils (Durchschnittsbruttoeinkommen Angestellte*r in Vollzeit oder Teilzeit (Statistisches Bundesamt (Destatis), 2021)). Bei nicht erwerbstätigen oder erwerbsfähigen Personen wurde der Umfang der informellen Leistungen mit der üblichen Bezahlung der einer formellen Pflegekraft gewichtet (Krauth et al., 2005).

5.5.Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements

5.5.1. Fallzahlberechnung

Die Interventionsstudie war „explorativ“, da eine seltene Erkrankung untersucht wurde und somit nur relativ geringe Fallzahlen erreicht werden konnten. Für alle quantitativen Datenanalysen gilt, dass im Rahmen des geplanten Studiendesigns aufgrund der eher geringen Fallzahl bei seltenen Erkrankungen nicht davon auszugehen ist, dass ein Wirksamkeitsnachweis auf der Basis statistischer Signifikanzprüfungen geführt werden kann. Angestrebt wurde eine Fallzahl von $N = 50$ (jeweils 25 in Interventions- und Kontrollgruppe). Bei dieser in der Erhebung machbaren Fallzahl wäre nur ein unrealistisch hoher Effekt der Effektgröße 0.70 (t-Test, $\alpha = 0.05$, $\beta = 0.80$; Berechnung mit der Software G*Power) als signifikant nachweisbar. Eine detaillierte Poweranalyse kann somit entfallen. Stattdessen wurde der Fokus in der Evaluationsphase 3 auf die Bewertung von fallzahlunabhängigen Effektgrößen gelegt.

5.5.1. Teilnehmende und Rekrutierung

$N = 32$ Eltern (Interventionsgruppe: $n = 21$; Kontrollgruppe: $n = 11$), deren Kinder eine genetisch bestätigte SMA (Typ I oder Typ II) hatten, nahmen an Phase 3 teil. Die Teilnahme war unabhängig vom Krankheitsverlauf des Kindes, d.h. eine Aufnahme in Phase 3 der Studie war unmittelbar nach Diagnosestellung oder zu einem späteren Zeitpunkt möglich. Ein Anteil der Teilnehmenden partizipierten bereits in Phase 2. Die Teilnehmenden der IG wurden im Muskelzentrum Freiburg, die Teilnehmenden der KG im Muskelzentrum Essen und Tübingen rekrutiert. Behandelnde Neuropädiater in den Muskelzentren sprachen die Teilnehmenden an und kontrollierten die Einschlusskriterien während des Rekrutierungsprozesses. Alle Eltern erteilten ihre schriftliche Einwilligung zur Teilnahme. Die Teilnehmenden der IG erhielten einen Festbetrag von 60 € als Aufwandsentschädigung, die Teilnehmenden der KG erhielten 25 € pro ausgefülltem Interview oder Fragebogen. Abbildung 5 visualisiert den Studienverlauf für teilnehmende Eltern in Phase 3.

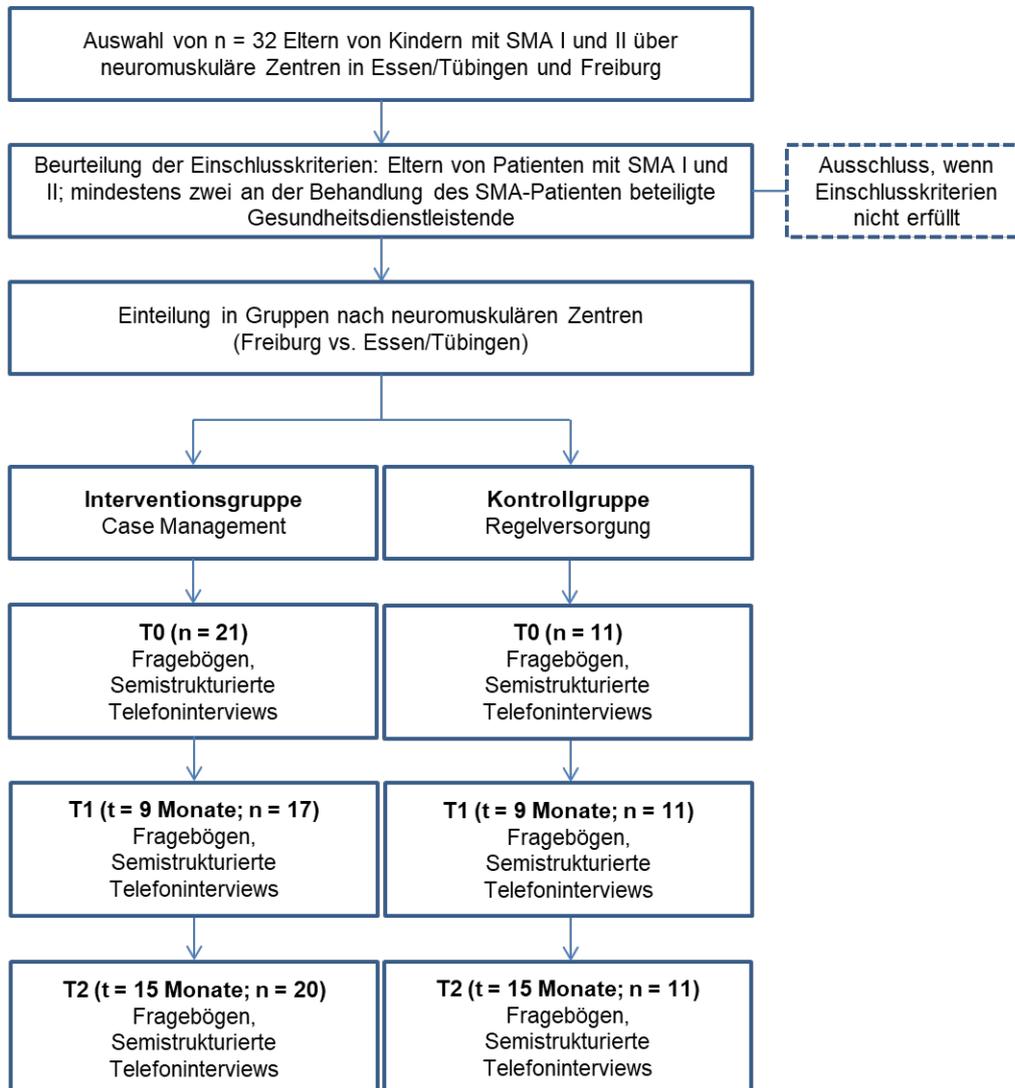
Ein- und Ausschlusskriterien

Einschlusskriterien: Eltern von Patient*innen mit SMA I und II; mindestens zwei Gesundheitsdienstleistende müssen an der Versorgung der Patient*innen beteiligt sein

Ausschlusskriterien: Einschlusskriterien nicht erfüllt oder die Teilnahmeverweigerung des/der Patienten/Patientin bzw. des Elternteils

Abbildung 5

Flussdiagramm teilnehmender Eltern in Phase 3



5.5.2. Ergebnisevaluation - Messung der primären Endpunkte

Zu T0 erhielten die Teilnehmenden pseudonymisierte Papierfragebögen zu den primären Endpunkten (Qualität der Behandlungsintegration und GLQ der Eltern) sowie soziodemographischen Informationen. Um die Langfristigkeit der Effekte nach 9 und 15 Monaten (T1, T2) zu testen, erhielten die Eltern Follow-Up-Fragebögen, die mit denen der T0-Messung identisch waren. Um die Auswirkungen der CM-Intervention auf die ausgewählten primären Endpunkte zu untersuchen, wurden die folgenden Instrumente eingesetzt:

1. Qualität der Behandlungsintegration aus Sicht der Eltern

Zur Erfassung der elterlich bewerteten Behandlungsintegration kam der in Phase 1 entworfene PICS-D zum Einsatz. Der 13-Likert-Skalen-Items umfassende Fragebogen untersucht die von den Eltern bewertete Behandlungsintegration anhand von zwei Skalen: „Teamqualität & -kommunikation“ (TQC) und „Auswirkungen auf die Familie“ (FI). Höhere Skalenwerte wiesen auf eine besser wahrgenommene Behandlungsintegration hin (Willems et al., 2021).

2. GLQ der Eltern

Zur Bewertung der GLQ der Eltern wurden zwei Fragebögen eingesetzt:

(a) *Familien-Belastungs-Fragebogen (FaBel)* (Ravens-Sieberer et al., 2001)

Der FaBel-Fragebogen wurde eingesetzt, um die elterliche Einschätzung der familiären Belastung durch die Krankheit ihrer Kinder zu erheben. Er basiert auf der „Impact on Family Scale“, die ins Deutsche übersetzt und psychometrisch getestet wurde (Stein & Riessman, 1980). Der Fragebogen enthält 33 Likert-skalierte Items zur Erfassung der täglichen sozialen Belastung der Eltern, der persönlichen Belastung, der Belastung der Geschwisterkinder, der finanziellen Belastung, der Probleme bei der Bewältigung der Belastung sowie einen Summenwert für die Gesamtbelastung (total score; FaBel-T). Höhere Skalenwerte wiesen auf eine schwerere Belastung hin.

(b) *Short-Form-Health-Survey (SF-12)* (Drixler et al., 2020)

Der SF-12 kam zum Einsatz, um die elterliche GLQ innerhalb der vergangenen vier Wochen zu erfassen. Dabei handelt es sich um einen generischen 12-Item-Fragebogen, der einen Gesamtwert für den subjektiven Gesundheitszustand in Bezug auf die körperliche (SF12-K) und psychische Gesundheit (SF12-P) liefert. Der SF-12 ist eine Kurzform des SF-36. Vier Einzelitems (Allgemeine Gesundheitswahrnehmung, Schmerzen, Vitalität Soziale Funktionsfähigkeit) und vier Itempaare (Körperliche Funktionsfähigkeit, Körperliche Rollenfunktion, Emotionale Rollenfunktion, Psychische Befinden) referenzieren die acht Dimensionen des SF-36 (Morfeld et al., 2011). Der Gesamtwert des SF-12 ergibt sich aus jeweils vier Gesundheitskomponenten: Die körperliche Gesundheit umfasst die allgemeine Gesundheitswahrnehmung, die körperliche Funktionsfähigkeit und Rolleneinschränkungen aufgrund von körperlichen Gesundheitsproblemen und körperlichen Schmerzen; die subjektive psychische Gesundheit umfasst die Vitalität (Energie/Müdigkeit), die soziale Funktionsfähigkeit und Rolleneinschränkungen aufgrund von emotionalen Problemen und psychischer Gesundheit. Höhere Skalenwerte weisen auf einen besseren Gesundheitszustand hin.

5.5.3. *Ergebnisevaluation - Messung des sekundären Endpunkts*

1. GLQ der Kinder (Pediatric Quality of Life Inventory; PedsQL™ 4.0 SF15)

Darüber hinaus wurde die GLQ der Kinder durch den PedsQL™ 4.0 SF15 (Chan et al., 2005) durch ihre Eltern bewertet. Der Fragebogen mit 15 Likert-skalierten Items ist eine Kurzform der 23 Items umfassenden PedsQL™ 4.0 Generic Core Scales, die zur Erfassung der allgemeinen gesundheitsbezogenen Lebensqualität in den vergangenen vier Wochen entwickelt wurde. Es kamen die Standardversionen des Erwachsenenberichts für „Toddler“ (2-4 Jahre) und „Young Children“ (5-7 Jahre) zum Einsatz. Der Fragebogen enthält vier Skalen, die Probleme im körperlichen und emotionalen Bereich sowie im Umgang mit anderen Kindern und in der Tagesbetreuung/dem Kindergarten oder der Schule umfassten. Zusätzlich gab es einen Gesamtwert (PedsQL-T). Höhere Skalenwerte weisen auf eine höhere Problembelastung hin.

5.5.4. *Prozessevaluation der CM-Intervention*

Zu den drei Zeitpunkten (T0-T2) wurden wiederkehrende semi-strukturierte Telefoninterviews mit den Teilnehmenden geführt (Interviewleitfäden: Anlage 4). Wir fragten nach dem elterlichen Aufwand innerhalb des Versorgungsmanagements, hinsichtlich der Bewertung der Qualität der Behandlungsintegration zu T0 sowie zu Veränderungen dieser Komponenten im Zeitverlauf (T1/T2). Darüber hinaus sammelten wir Informationen über ungeplante medizinische und therapeutische Versorgungsleistungen aufseiten des Kindes und

Fehlzeiten bei der Arbeit aufseiten der Eltern, um die Versorgung des Kindes zu gewährleisten. In der IG dienten die Telefoninterviews auch zur Bewertung des CM-Interventionsprozesses (Wahrnehmung der Durchführbarkeit der Intervention in Bezug auf die Behandlungsintegration). Das Telefoninterview dauerte im Durchschnitt 15 Minuten und wurde von einer Mitarbeiterin des Projektteams geführt. Die semi-strukturierten Interviewleitfäden wurden in Anlehnung an Helfferich (Helfferich, 2019) entworfen und nach Überprüfung durch das gesamte Team finalisiert. Sie wurden zwischen den Messzeitpunkten geringfügig angepasst, um aktuelle Ereignisse in der Versorgung von Kindern mit SMA zu berücksichtigen (z. B. COVID-19, Zulassung neuer Medikamente). Alle Interviews wurden mit Einverständnis der Teilnehmenden digital aufgezeichnet. Die Audioaufnahmen wurden von einem externen Transkriptionsdienstleister (amanu GmbH) transkribiert. Personenbezogene Daten wurden im Verlauf der Transkripterstellung pseudonymisiert. Die Transkripte wurden nicht an die Teilnehmenden zur Kommentierung oder Korrektur zurückgegeben.

5.5.5. Analysen der Ergebnis- und Prozessevaluation

5.5.6.1. Ergebnisevaluation – Primäre und sekundäre Endpunkte

Alle statistischen Analysen wurden mit R (Version 4.0.3) (R Foundation for Statistical Computing, 2020) durchgeführt. Es wurden lineare gemischte Modelle (engl.: linear mixed models; LMM) mit random intercepts verwendet, um die Auswirkungen der Gruppe (IG, KG) und des Zeitpunkts (T0-T2) sowie potenzielle cross-level Interaktionseffekte auf die gewählten Endpunkte zu analysieren. Die Clustervariable war die Fall-ID (level 2 measurement) mit dem darin verschachtelten Zeitpunkt (level 1 measurement). Für alle Kriterien (Skalen der verwendeten Fragebögen) wurden separate Analysen durchgeführt. Da eine seltene Krankheit untersucht wurde, konnten nicht ausreichend Teilnehmende rekrutiert werden, um Hypothesen auf statistische Signifikanz zu testen. Stattdessen konzentrierten sich die Analysen auf die Bestimmung von Effektgrößen (ES; marginales R^2 , R^2_m (Nakagawa et al., 2017)). R^2_m ist der Anteil der Varianz in der abhängigen Variable, der durch die Mittelwertunterschiede in allen festen Effekten (Prädiktoren = Gruppe und Zeitpunkt) erklärt wird. Es wurde die Hypothese getestet, ob die ES für alle Analysen nach den üblichen Konventionen mindestens mittelgroß sein würde ($R^2_m \geq 0,06$). Die Analysen wurden mit den Paketen lme4 (Bates et al., 2015, S. 4) und lmerTest (Kuznetsova et al., 2017) durchgeführt. Es wurden die Freiheitsgrade von Satterthwaite verwendet, die im Paket lmerTest implementiert sind. Ein Vorteil der durchgeführten Mehrebenenanalysen besteht darin, dass keine gleiche Anzahl von Beobachtungen oder festen Messzeitpunkten vorausgesetzt wird, so dass Teilnehmende mit fehlenden Werten in der abhängigen Variable keine Probleme darstellen und alle Fälle in der Analyse bleiben können (Hox et al., 2017).

5.5.6.2. Prozessevaluation der CM-Intervention

Die Transkripte der Interviews wurden mit Hilfe der qualitativen Inhaltsanalyse analysiert, die sich weitgehend auf den Ansatz von Kuckartz (Kuckartz, 2018) stützte. Zur Erstellung eines Codesystems wurde ein induktiver Ansatz verwendet, um den Evaluationsgegenstand aus der Perspektiven der Teilnehmenden zu erfassen. Um die intersubjektive Nachvollziehbarkeit zu gewährleisten, wurden der Codesystem sowie der Leitfaden vom gesamten Projektteam überprüft und gemäß Rückmeldungen angepasst. Das gewählte mehrstufige Auswertungsverfahren wird im Folgenden skizziert: (a) Das transkribierte Textmaterial wurde intensiv gelesen und pseudonymisiert. Es wurden kurze Fallzusammenfassungen verfasst. (b) Anhand der Fallzusammenfassungen wurden induktiv Codes extrahiert. (c) Dieses primäre Codesystem wendeten wir auf eine Quotenstichprobe an, die aus 20% des Datenmaterials bestand ($N \approx 7$). Dabei wurden die Codes durch kontinuierliche Reflexion mehrfach verfeinert und in Haupt- sowie Subcodes eingeteilt. (d) Anschließend begannen wir mit der ersten Kodierung des gesamten Materials mit Hilfe des bis dahin festgelegten Codesystems. Die

Codes wurden bei Bedarf nochmals überarbeitet, z.B. zusammengefasst oder in weitere Sub-Codes differenziert. Unstimmigkeiten in der Kodierung wurden diskutiert und das endgültige Codesystem von 3 Hauptcodes und 8 Subcodes wurde konsentiert. (f) Dieses endgültige Codesystem wurde auf alle Transkripte angewendet. Der Prozess der (Sub-)Codebildung erfolgte iterativ, bis eine akzeptable Trennschärfe und Tiefe der Kategorien erreicht war. (g) Im nächsten Schritt paraphrasierten wir alle Aussagen eines Teilnehmenden, die demselben Code zugeordnet waren. Die Gesamtergebnisse wurden aus einer Code x Teilnehmenden-Zusammenfassungs-Matrix extrahiert.

Die Dauer der einzelnen Interviews lag zwischen 3 und 25 Minuten. Das Datenmanagement sowie die Datenanalyse erfolgte mit der qualitativen Datenanalyse-Software MAXQDA Plus 2022 (Version 22.1.0).

5.5.6.3. Gesundheitsökonomische Evaluation

Die Kosten der Intervention bestanden in erster Linie im Personalaufwand, der für die CM-Intervention entsteht. Die Kostenermittlung erfolgte statistisch deskriptiv. Hierfür wurde der zeitliche Aufwand der Tätigkeiten für die Behandlungsintegration dokumentiert und nach Tätigkeiten mit und ohne direktem Familienkontakt unterschieden. Die Kosten wurden durch das Verhältnis von zeitlichem Aufwand und tariflichem Lohn der Case Managerinnen je Patient*in ermittelt (E9/10 UK; Arbeitgeberverband der Universitätsklinik e.V., 2021).

6. Projektergebnisse

6.1. Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS)

6.1.1. Stichprobencharakteristika

Tabelle 2

*Deskriptive Charakteristika der N= 204 befragten Eltern und SMA-Patient*innen*

Variable	%
Geschlecht (N = 202)	
Weiblich	84.3
Männlich	14.7
Alter zum Zeitpunkt der Erhebung (N = 201)	
<30 Jahre	7.5
30-40 Jahre	40.8
40-50 Jahre	35.3
>50 Jahre	15.4
Beziehung zum Kind (N = 203)	
Mutter	80.4
Vater	13.7
Anderer	5.5
Höchster Bildungsabschluss (N = 203)	
Grund-/Haupt-/Realschule (Mittlere Reife)	10.3
Abitur(Allgemeine Hochschulreife)	6.4
Abgeschlossene Ausbildung	38.4
Hochschule/Universität (Bachelor, Master, Doktor)	22.7
Anderer	22.3
Familienstand (N = 202)	
Ledig	5.4
Verheiratet	77.7
In einer festen Partnerschaft lebend	5.4

Akronym: SMA-C+

Förderkennzeichen: 01VSF18005

Geschieden, getrennt lebend	10.4
Verwitwet	1.0
Erwerbsstatus (N = 201)	
Angestellte/r, Vollzeit	18.4
Angestellte/r, Teilzeit	41.8
Beamte/r	6.0
selbstständig	8.5
Nicht erwerbstätig/erwerbsfähig	15.4
Anderer	10.0
Geschlecht Kind (N = 204)	
Weiblich	49.5
Männlich	50.5
Kindesalter zum Zeitpunkt der Erhebung (N = 202)	
<1 Jahr	2.5
1-3 Jahre	20.3
3-12 Jahre	44.1
12-18 Jahre	24.3
>18 Jahre	8.9
Anzahl der in die Behandlung des Kindes involvierten Gesundheitsdienstleistenden (N = 202)	
2-5	47.0
6-10	38.1
11-15	10.4
>15	4.5
Krankenversicherung (N = 199)	
Gesetzlich	75.4
Gesetzlich mit Zusatzversicherung	12.1
Privat	12.1
Ich weiß es nicht.	0.5
Zu Hause überwiegend gesprochene Sprache (N = 203)	
Deutsch	85.2
Andere	14.8

6.1.2. Angaben zur strukturellen Validität

Der KMO-Koeffizient ($KMO = .89$) und der Sphärizitätstest nach Bartlett ($\chi^2 = 1427.29$, $p < .001$) zeigen, dass die von uns erhobenen Daten für eine EFA geeignet sind. Die finale EFA der PICS-D-Items ergab drei Faktoren, die 58 % der Varianz erklären (s. Tabelle 3). Die standardisierten Ladungen der Items waren ≥ 0.53 auf Faktor 1 („Teamqualität & -kommunikation“; TQC) für die Items 22, 23, 25, 26, 28, 29 und 32; ≥ 0.40 auf Faktor 2 („Auswirkungen auf die Familie“; FI) für die Items 33, 34, 35 und 27; und ≥ 0.71 auf Faktor 3 („Zugang zur Versorgung“) für die Items 17 und 18. Für Item 24 (Bedenken mit dem Versorgungsnetz teilen) und Item 36 (auf andere Weise, als durch einen persönlichen Besuch kommunizieren) zeigten die Ergebnisse eine geringe Ladung auf jedem Faktor (Item 24: 0.23, 0.19 und 0.10 auf Faktor 1, 2 bzw. 3; Item 36: 0.33, 0.26 und 0.03 auf Faktor 1, 2 bzw. 3). Die vorausgehenden kognitiven Interviews ergaben, dass beide Items aufgrund ihrer Länge und komplizierten Syntax eher schwer verstanden wurden. Die erste CFA ergab, dass Item 27 unzureichende Werte in den Modifikationsindizes der kongenerischen Reliabilität aufwies. Die Aufnahme des Items in Faktor 1 verringerte die Reliabilitätskoeffizienten und führte zu einer schlechteren Passung mit dem ausgewählten Modell der klassischen Testtheorie. Aufgrund statistischer und klinisch-inhaltlicher Erwägungen wurden diese drei Items daher aus den weiteren Analysen ausgeschlossen. Die verbleibenden 13 Items bildeten die in Tabelle 3 dargestellte Faktorenstruktur.

Tabelle 3*Explorative Faktorenanalyse der psychometrisch getesteten Likert-skalierten PICS-D-Items*

Itemnr. im originalen PICS	Item-Wortlaut des PICS-D	Faktor 1	Faktor 2	Faktor 3
22	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Ihnen Dinge so erklärt, dass Sie sie verstehen konnten?	0.63	-0.11	-0.03
23	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Behandlungsempfehlungen zwischen den Mitgliedern des Versorgungsnetzes weitergegeben wurden?	0.53	0.22	0.01
25	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Sie von den Mitgliedern des Versorgungsnetzes gehört wurden, wenn Sie etwas über die Gesundheit Ihres Kindes zu sagen hatten?	0.88	-0.06	0.10
26	Wie oft wurde mit Ihnen besprochen, wer für die verschiedenen Bereiche der Versorgung Ihres Kindes verantwortlich ist?	0.61	0.28	0.00
28	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes ihre Aufgaben in der Versorgung Ihres Kindes erfüllten?	0.78	-0.05	-0.08
29	Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes bei der Betreuung Ihres Kindes seine Gesamtsituation berücksichtigt haben, d.h. alle Bedürfnisse Ihres Kindes?	0.61	0.20	-0.12
32	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Sie als vollwertige/n Partner/in behandelt?	0.68	0.02	-0.11
33	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen darüber gesprochen, wie sich Entscheidungen über die Versorgung Ihres Kindes auf Ihre ganze Familie auswirken werden?	0.15	0.70	-0.12
34	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen über Belastungen gesprochen, die sich für Sie durch die Erkrankung Ihres Kindes ergeben können?	0.01	0.92	-0.02
35	Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Situationen angesprochen, die es Ihnen schwer machen können, sich um die Gesundheit Ihres Kindes zu kümmern (z.B. Arbeit, eigene Krankheit etc.)?	-0.04	0.91	0.07
37	Wie oft haben Ihnen die Mitglieder des Versorgungsnetzes die Möglichkeit angeboten, mit anderen betroffenen Familien in Kontakt zu treten?	0.05	0.40	-0.02
17	Wie oft hatten Sie Schwierigkeiten bzgl. medizinischer oder sozialer Dienste (z.B. Therapien, Integrationshilfe etc.), weil es Wartelisten oder andere Probleme bei der Terminvergabe gab?	0.07	-0.04	0.77
18	Wie oft hatten Sie Schwierigkeiten bzgl. medizinischer oder sozialer Dienste (z.B.	-0.11	0.06	0.71

Therapien, Integrationshilfe etc.), weil Sie nicht wussten, wer der richtige Ansprechpartner ist?

Extraktionsmethode: „Principal axis factoring“ nach „direct oblimin rotation“. Item Informationen zusammengefasst zu drei Faktoren: „Teamqualität & -kommunikation“ (Faktor 1), „Auswirkungen auf die Familie“ (Faktor 2), und „Zugang zur Versorgung“ (Faktor 3). Werte sind standardisierte Faktorladungen: ein höherer Wert bedeutet eine starke Korrelation mit dem entsprechenden Faktor. Werte größer oder gleich 0.40 sind kursiv.

Wir führten einen weiteren Test der Eindimensionalität der extrahierten Faktoren durch (zweite CFA). Dabei wurde die Modellpassung des kongenerischen Modells für die Faktoren 1 und 2 getestet. Das kongenerische Modell ist das am wenigsten restriktive Modell der klassischen Testtheorie, bei dem alle Items zu einer latenten Dimension gehören. Die Anpassungsindizes zeigten eine gute Übereinstimmung zwischen dem Modell und den Daten für Faktor 1 (CFI = 0.96, TLI = 0.94, RMSEA = 0.10) und eine angemessene Übereinstimmung für Faktor 2 (CFI = 0.99, TLI = 0.96, RMSEA = 0.12). Da Faktor 3 nur aus zwei Items bestand, wurde zur Prüfung der Eindimensionalität ein Parallelmodell verwendet, da für weniger restriktive Modelle eine größere Anzahl an Items erforderlich sind. Das Parallelmodell kombiniert die Eigenschaften des kongenerischen Modells mit der Annahme, dass die Korrelationen und Messfehler über alle Items hinweg gleich sein sollten. Die Anpassungsindizes deuteten auf eine gute Übereinstimmung zwischen dem Modell und den Daten für Faktor 3 hin (CFI = 1.00, TLI = 1.00, RMSEA < 0.01). Bei der Untersuchung des gesamten dreifaktoriellen Modells deuteten die Anpassungsindizes auf eine gute Übereinstimmung zwischen dem Modell und den Daten hin (CFI = 0.95, TLI = 0.94, RMSEA = 0.07) (Willems et al., 2022).

6.1.3. Abweichungen gegenüber der ursprünglichen Planung

Statt der angestrebten Befragungspopulation von N = 400 Eltern chronisch erkrankter Kinder, erreichten wir eine Stichprobengröße von N = 204. Damit liegt die Stichprobengröße an der unteren Grenze der Machbarkeit für psychometrische Überprüfungen. Zur Untersuchung der Inhaltsvalidität sollte das Verfahren der „known group comparisons“ eingesetzt werden. Dies war nicht möglich, da der PICS-D keine relevanten Merkmale zur Definition von a priori Gruppen aufwies und keine unabhängige Erhebung von Charakteristika zur Definition von a priori Gruppen stattfand, um das Prinzip der Datenminimierung (Art. 5 DSGVO) zu gewährleisten (lediglich pseudonymisierte Zuordnung zur Einwilligungserklärung) (Hattie & Cooksey, 1984). Aufgrund der geringen Stichprobengröße war zudem eine Überprüfung der Passung des PICS-D zu den Anforderungen des Rasch-Modells nicht durchführbar. Polytome Modelle (Items mit mehr als zwei Antwortoptionen) setzen zur Überprüfung dieser Annahmen größere Stichproben voraus. Stattdessen wurden gängige Modelle der Klassischen Testtheorie verwendet, um die Güte der Faktorenstruktur zu bewerten.

6.2. Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II

6.2.1. Stichprobencharakteristika

Tabelle 4

Deskriptive Charakteristika der N= 21 interviewten Eltern

Variable	%
Geschlecht	
Weiblich	71.4
Männlich	28.6

Alter zum Zeitpunkt der Erhebung	
<30 Jahre	9.5
30-40 Jahre	57.2
40-50 Jahre	33.3
Höchster Bildungsabschluss	
Grund-/Haupt-/Realschule (Mittlere Reife)	19.0
Abgeschlossene Ausbildung	23.6
Hochschule/Universität (Bachelor, Master, Doktor)	28.6
Anderer	28.6
Familienstand	
Ledig	4.8
Verheiratet	76.1
In einer festen Partnerschaft lebend	14.3
Geschieden, getrennt lebend	4.8
Erwerbsstatus	
Angestellte/r, Vollzeit	19.0
Angestellte/r, Teilzeit	38.1
Beamte/r	4.8
Nicht erwerbstätig/erwerbsfähig	33.3
Anderer	4.8

6.2.2. Ergebnisse der semi-strukturierten Interviews mit Eltern

Die folgenden Hauptcodes und Subcodes (Tabelle 5), die als Ergebnis der semi-strukturierten mit den an Phase 2 teilnehmenden N = 21 Eltern hervorgingen, geben Aufschluss über den Status Quo der Behandlungscoordination innerhalb der Versorgung von Kindern mit SMA Typ I und II. Zur besseren Verständlichkeit wurde der Begriff „Behandlungscoordination“ gewählt, da „Behandlungsintegration“ gemäß den Pilotinterviews in Phase 1 häufig zu Irritationen aufseiten der befragten Eltern führte. Der Interviewleitfaden war jedoch so konzipiert, dass er die zusätzlichen Themenbereiche beinhaltet, die per definitionem dem Begriff „Behandlungsintegration“ zugeordnet werden. Jeder Code sowie Subcode enthält sowohl Barrieren, als auch Förderfaktoren im Hinblick auf die Behandlungscoordination. Eine strikte Separierung der Codes und Subcode in „positive“ und „negative“ Faktoren erschien im Rahmen der Rückmeldung durch die befragten Eltern als nicht sinnvoll, da häufig ein „gemischtes Bild“ der Behandlungscoordination berichtet wurde. Infolgedessen können Aspekte jedes Codes und Subcodes einen förderlichen oder hinderlichen Einfluss auf die Behandlungscoordination haben, je nachdem, wie sie durch die Eltern beschrieben wurden. Dies ist jedoch in jeder Codebeschreibung klar dargestellt.

Aus Gründen der besseren Lesbarkeit wird der Terminus „Fachkräfte“ verwendet, der alle Fachkräfte aus dem medizinischen und nicht-medizinischen Bereich beinhaltet, die an der Versorgung der SMA-Patient*innen beteiligt sind. Beziehen sich Aspekte der Codes und Subcodes auf ausgewählte Fachkräfte, sind diese benannt.

Tabelle 5

Finales Codesystem der semi-strukturierten Interviews mit Eltern und Gesundheitsdienstleistenden in Phase 2

Hauptcodes	Subcodes
Krankheits- und Koordinationsmanagement der Eltern	
Rahmenbedingungen der Versorgung	

Fachwissen und Fertigkeiten	Fachwissen & Fertigkeiten aufseiten der Fachkräfte
	Fachwissen & Fertigkeiten aufseiten der Eltern
Koordinationsstruktur	Bestehende Koordinationsmechanismen
	Wahrgenommener Koordinationsbedarf
Informationsaustausch	Informationsaustausch zwischen Eltern und Fachkräften
	Informationsaustausch zwischen Eltern
	(Wahrgenommener) Informationsaustausch zwischen Fachkräften
Rollenverteilungen in der Behandlungscoordination	Rolle des/der Kinderarztes/Kinderärztin
	Rolle des Muskelzentrums
	Rolle der lokalen Versorgenden
	Rolle des SPZ/Frühförderzentrums
	Rolle der Eltern
Qualität der Beziehung	

Krankheits- und Koordinationsmanagement der Eltern

Dieser Code beschreibt die Ressourcen und Barrieren bei der Bewältigung von organisatorischen oder koordinationsbezogenen Krankheitsanforderungen und den damit verbundenen Folgen. Die befragten Eltern berichteten über vier Hauptthemenbereiche in ihrem Krankheits- und Koordinationsmanagement: (a) Erleben von Selbstwirksamkeit/Vertrauen in die Behandlungscoordination, (b) Erleben von Unsicherheit/Gefühl der Ohnmacht in der Behandlungscoordination, (c) Erleben von Verantwortungsbewusstsein in der Behandlungscoordination, (d) Umgang mit den Konsequenzen von (als unzureichend empfundener) Behandlungscoordination. Da die Übergänge zwischen den Themenbereichen relativ fluktuierend sind, bilden diese keine eigenen Subcodes. Abhängig von den jeweiligen Bereichen beinhaltet dieser Code förderliche oder hinderliche Elemente im Hinblick auf die Behandlungscoordination.

(a) Erleben von Selbstwirksamkeit/Vertrauen in koordinative/organisatorische Aufgaben

Nur wenige Eltern bezogen sich auf diesen Bereich. Sie gaben an, über ein (soziales) Netzwerk zur Unterstützung zu verfügen, z. B. eigene Eltern, Partner*innen oder andere betroffene Personen. Ebenso nannten sie unterstützende Informationsquellen, wie z. B. das Internet oder Treffen von Patientenorganisationen. Sie berichteten über ihr Fachwissen, das durch Erfahrung wächst und ihnen ein Gefühl der Sicherheit in Bezug auf die Behandlungscoordination gibt.

„Die ersten ein, zwei Jahre waren wirklich ein Auf und Ab und nervenaufreibend, aber inzwischen haben wir alles gut im Griff. Wir haben unseren Pflegedienst. Wir haben unsere Therapeuten. Ja, wir wissen selbst super gut, was wir selbst bei Infektionen zu tun haben, was wir inhalieren müssen, wie wir reagieren müssen. Wir wissen, wann und wie wir Sauerstoff geben müssen, welche Parameter auf dem Pulsoxymeter für ihn gut sind und welche schlecht sind. [...] Also ja, wir haben schon ein bisschen medizinisches Fachwissen.“

„Wir hatten das Glück, dass wir auch eine gute Familie im Hintergrund haben, die uns auffängt und unterstützt. Wir haben einen starken Charakter und eine gewisse Bildung. Wir können uns gut durchsetzen. Aber nicht jeder hat einen solchen Hintergrund.“

(b) Erleben von Unsicherheit/Gefühl der Ohnmacht in der Behandlungscoordination

Deutlich mehr Eltern berichteten über Gefühle der Unsicherheit und Ohnmacht in Bezug auf die Behandlungscoordination. In diesem Zusammenhang erwähnten sie den hohen Informationsinput sowie eine kognitive Belastung durch eine große Anzahl von Koordinationsaufgaben. Dies ist verbunden mit Zweifeln, ob bestimmte Behandlungsoptionen die richtigen sind oder zum richtigen Zeitpunkt erfolgen sowie mit einer generellen Unsicherheit über die heterogene, symptomatische Behandlung bei Kindern mit SMA.

„Manchmal ist man sehr unsicher. Es ist ganz gut, dass wir Selbsthilfegruppen und Ärzte haben - aber wenn die Meinungen unterschiedlich sind, dann ist es ziemlich schwierig zu beurteilen. Hat man Recht? Oder was soll ich jetzt machen?“

„Was ich da gelesen habe, kann ich nicht mehr sagen... Weil ich zum Teil so viel Input habe.“

(c) Erleben von Verantwortungsbewusstsein in der Behandlungscoordination

In engem Zusammenhang mit dem vorherigen Bereich berichteten fast alle Eltern von einem Gefühl der (alleinigen) Verantwortung im Rahmen der Behandlungscoordination. Die Befragten beschrieben das Gefühl, ständig für alles verantwortlich zu sein und ein hohes Maß an Handlungsdruck zu verspüren. In diesem Zusammenhang berichteten einige der befragten Eltern, dass sie das Gefühl hatten, sich nicht auf das Fachpersonal verlassen zu können und daher viele Angelegenheiten selbst regeln zu müssen. Sie beschrieben ebenso ein hohes Ausmaß an Motivation, sich selbst über SMA zu informieren.

„Wir selbst sorgen dafür, dass wir zusammen mit unserem Pflegedienst auch Therapien mit ihm durchführen. Wir machen jeden Tag etwas, weil wir gemerkt haben [...], dass man bei SMA nie genug tun kann.“

„[...] wir sind Mitglied in der Deutschen Gesellschaft für Muskelkranke geworden. Es ist gut, sich austauschen zu können. Man sieht einfach, wie andere Familien es schaffen. Das gibt einem immer ein bisschen Ansporn.“

„Es stimmt, [...] wir müssen sehr viel Zeit investieren, um [...] alle Informationen weiterzugeben und uns wirklich um jedes Detail zu kümmern. Natürlich ist es sehr anstrengend, alles zu durchdenken. Manchmal hat man also großen Respekt vor dieser Verantwortung.... Manchmal klappt es besser, dass man sich dem stellt, und manchmal weniger.“

(d) Umgang mit den Konsequenzen von (als unzureichend empfundener) Behandlungscoordination

Außerdem berichtete ein kleiner Anteil der Eltern über die Folgen einer (als unzureichend empfundenen) Behandlungscoordination. Einige Behandlungen wurden in den Augen der Eltern zu spät eingeleitet. Sie beschrieben, dass es schwer zu ertragen war, warten zu müssen und zu akzeptieren, dass Zeit und Mühe ihrerseits nicht den gewünschten Fortschritt bringen würden. Einige beschrieben sogar eine Veränderung ihrer Persönlichkeit aufgrund der intensiven Behandlungscoordination sowie das Insistieren auf verzögerte Behandlungsmaßnahmen (z. B. die Anforderung von Hilfsmitteln).

„Und so ist es auch bei dieser Krankheit: Je früher man mit der Behandlung beginnen kann, desto eher wird man Erfolg haben. Ich würde sagen, dass wir bereits vier bis sechs Wochen

nach der Geburt die ersten Symptome hatten. E. war fünf Monate alt, als wir mit der Behandlung begannen. Und das ist sehr frustrierend.“

„Also ich habe mich dadurch auch sehr verändert. Ich war früher sehr schüchtern. Ich habe nicht versucht, meinen eigenen Instinkt oder ein Gefühl einzubringen - ich habe wirklich nur akzeptiert, was gesagt wurde. Heute bin ich anders.“

Rahmenbedingungen der Versorgung

Zu den allgemeinen Bedingungen der Versorgung gehören relativ dauerhafte und anhaltende Bedingungen, die sich auf die Behandlungscoordination auswirken (König et al., 2021). Dies umfasst vor allem organisatorische Aspekte, die die Bereitstellung der Versorgung steuern, das Versorgungsnetz bilden und die Familie auf ihrem Weg durch die Versorgung begleiten (Van Houdt et al., 2013). Innerhalb dieser Kategorie haben wir zwei verschiedene Themenbereiche identifiziert: (a) Verfügbarkeit und Kompatibilität von (geeigneten) Fachkräften im Gesundheitswesen, (b) Organisationsstrukturen im Gesundheitswesen. Die Themenbereiche dienen lediglich einer inhaltlichen Sortierung. Aufgrund unzureichender Trennschärfe, bilden diese keine eigenen Subcodes.

(a) Verfügbarkeit und Kompatibilität von (geeigneten) Fachkräften im Gesundheitswesen

Innerhalb der Versorgungsorganisation von SMA gibt es lokale Anbieter in der Nähe des Wohnorts (z. B. Ergotherapie, Physiotherapie, Logopädie und häusliche Pflegedienste), die supportive Therapie oder pflegerische Unterstützung anbieten. Es gibt zudem spezialisierte Einrichtungen (z. B. Muskelzentrum, Sozialpädiatrisches Zentrum (SPZ) usw.), die medikamentöse Therapie und andere SMA-spezifische Versorgungsleistungen anbieten und oft weiter vom Wohnort der Familien entfernt sind.

Ein großer Anteil der befragten Eltern berichtete von einer begrenzten Auswahl an (guten) Gesundheitsdienstleistenden aufgrund eines dünnen lokalen Versorgungsnetzes. Die meisten Befragten berichteten über einen Mangel an lokalen Therapeuten und Krankenhäusern mit ausreichender Fachkenntnis über die seltene Erkrankung. Außerdem gibt es bundesweit nur wenige spezialisierte Muskelzentren. Die Eltern berichteten von langen Fahrtzeiten und einem hohen Koordinationsaufwand für Termine. Viele Eltern betonten vor allem die große Entfernung zum Muskelzentrum, welche es schwierig gestaltete, SMA-spezifische Probleme wohnortnah zu behandeln.

„Es wäre natürlich gut, wenn wir hier in Freiburg schon an das SPZ angeschlossen wären, weil dann hat man auch die Nähe zu allem. Also [im Muskelzentrum in Freiburg] wird man mit Spinraza behandelt, aber das SPZ begleitet die ganze Entwicklung - das wäre einfach ideal.“

„Also wir sind im ländlichen Raum und hier ist die Versorgung einfach generell schlechter. Wir versuchen immer, irgendwie ein Netz aufzubauen, aber es ist schwierig. Wir sind jetzt seit zwei Jahren dabei.“

„Die räumliche Trennung von uns und dem Muskelzentrum in Freiburg ist schwierig. Das sind 300 km. Wenn bei S. etwas nicht gut läuft, haben wir keinen Neurologen in der Nähe, den wir anrufen können.“

„Wir leben in einer Kleinstadt, es gibt keinen Orthopäden, der SMA-Patienten in seiner Kartei hat. So etwas finde ich eher in einer etwas größeren Stadt, d.h. ich muss ein bisschen weiter

fahren, um zu denen zu kommen, die oft einen SMA-Patienten sehen, um von dem Wissen zu profitieren, das dieser Therapeut/dieser Arzt hat.“

Gleichzeitig berichteten einige der befragten Eltern von verbesserten Koordinationsmöglichkeiten durch Beziehungen zwischen den Fachkräften des Gesundheitswesens aufgrund der örtlichen Nähe dieser.

„Ich muss sagen, dass ich aus V. komme, wo sich die Ärzte untereinander sehr gut kennen. Sie arbeiten schon seit der Diagnose zusammen. Das ist vielleicht ein Vorteil, den wir haben; dass sie sich gut kennen und zusammenarbeiten.“

(b) Organisationsstrukturen in der Versorgung

Einige Interviewteilnehmende bemängelten eine unzureichende Koordination bei Fachärzten oder im örtlichen Krankenhaus (z. B. lange Wartezeiten). Dies sei besonders schwierig in Kombination mit dem hohen Handlungsdruck, den die Eltern hinsichtlich der Behandlungscoordination des Kindes empfänden. Die Eltern sahen dies vor allem in den begrenzten zeitlichen und personellen Ressourcen des Gesundheitssystems begründet.

„Wir haben sechs Stunden auf den Termin beim Orthopäden gewartet. Wir haben dann ganz klar gesagt: Das war nichts, bitte machen Sie das nicht noch mal.“

„Man geht zum Facharzt und weiß, viele andere Patienten gehen auch zu ihm. Das macht es kompliziert: Zwei Monate Wartezeit auf einen Termin sind relativ normal.“

„Aber sonst machen wir alles selbst, weil wir wissen, dass die Personalausstattung in den Krankenhäusern einfach zu gering ist. Die können nicht 24 Stunden am Tag jemanden an M.s Bett stellen.“

Ein großer Anteil der Befragten beschrieb den intensiven, wiederkehrenden Kontakt mit der Krankenkasse als zeitverzögernde Komponente, die die Behandlungscoordination zusätzlich erschweren kann.

„In den letzten zwei Jahren war es wirklich stressig, vor allem, weil wir die Krankenkasse überzeugen mussten, was für unsere Tochter das Richtige ist.“

„Da sind die ständigen Kämpfe mit der Krankenkasse: Sie wollen es [ein Hilfsmittel] nicht genehmigen. Man muss den Papierkram noch mal machen.“

„Man hat ihm einen SPIO-Körper verschrieben. Das wurde sofort abgelehnt. Wir haben Einspruch eingelegt. Und seit einem Monat haben wir nichts mehr gehört [...]. Also habe ich noch einmal bei der Versicherung angerufen und gefragt, wie der Stand der Dinge ist. Wir haben keinen Brief bekommen, überhaupt nichts. Und dann muss man immer hinterher telefonieren... und wieder Widerspruch nach Widerspruch. Und bis jetzt wurde erst alles abgelehnt, bis wir es bekommen haben.“

Fachwissen und Fertigkeiten

Dieser Code beschreibt zum einen das (nicht) vorhandene Fachwissen und die Fertigkeiten der Eltern (Van Houdt et al., 2013, 2014). Zum anderen werden in diesem Code Aussagen der befragten Eltern zu den (nicht) verfügbaren Fertigkeiten und dem (nicht) verfügbaren Fachwissen der involvierten Fachkräfte zusammengefasst (Van Houdt et al., 2013, 2014). Dabei beziehen sich die genannten „Fertigkeiten“ hauptsächlich auf den professionellen Bereich sowie das damit verbundene Wissen und nicht auf sog. Metafähigkeiten (z. B. gute Kommunikationsfähigkeit). Expertise hingegen geht über das medizinische Wissen hinaus und bezieht sich auf das Wissen um bestehende Strukturen oder bestehende Rechte/Möglichkeiten in der Versorgung von Kindern mit SMA. Dieser Code ist demnach in zwei Subcodes unterteilt: (a) Fachwissen und Fähigkeiten der Fachkräfte, (b) Fachwissen und Fähigkeiten der Eltern.

(a) Subcode: Fachwissen und Fertigkeiten aufseiten der Fachkräfte

Die Interviewteilnehmenden beschrieben einen heterogenen Grad an SMA-spezifischem Fachwissen aufseiten der in die Versorgung involvierten Fachkräfte. Aufgrund der Seltenheit der Erkrankungen verfügten diese häufig über ein eher begrenztes Wissen. In diesem Zusammenhang berichteten die Eltern auch über ein unterschiedliches Maß an professioneller Unterstützung, z. B. bei der Beantragung von Hilfsmitteln sowie hinsichtlich der Aufklärung nach Erhalt der Diagnose oder über potentielle neue medikamentöse Behandlungen.

„Ich stelle fest, dass die Ärzte relativ wenig über diese Krankheit wissen. Das haben wir letztes Jahr sehr deutlich gemerkt, als wir bei der Kinderärztin waren und sie sagte: Ach, eine kleine Bronchitis, Tröpfchen würden schon reichen. Ein paar Tage später waren wir mit ihr im Krankenhaus und haben sie über das Wochenende intubiert.“

„Also, unsere Kinderärztin war eher der Meinung: Jetzt lasst mal alles sacken ... aber ich konnte nicht tatenlos zusehen und nichts tun. Deswegen sind wir auch selbst aktiv geworden. Also, sie hat nicht das [...] Wissen über SMA, was auch daran liegt, dass die Krankheit so selten ist. [...] Das ist Neuland für die Ärzte.“

„Warum findet man keinen guten Physiotherapeuten für ein SMA-Kind? Den gibt es nicht. Den gibt es einfach nicht. [...] Spezialisierte Physiotherapeuten, die wissen, was sie tun: Wie weit kann ich dehnen? Wie weit kann ich denken? Was tritt bei SMA auf, wenn man überdehnt? Genau daran mangelt es oft. Das Fachwissen ist nicht da.“

Neben den krankheitsspezifischen Fähigkeiten und Kenntnissen berichtete eine kleine Gruppe der Interviewteilnehmenden zudem über einen heterogenen Wissensstand darüber, welche zusätzlichen Angebote und Möglichkeiten es innerhalb der Versorgung von SMA-Patient*innen gibt (z.B. Wissen über die generelle Existenz von Muskelzentren in Deutschland).

„Ich habe vermisst, dass wir in dem Krankenhaus, in dem wir die Diagnose bekommen haben, darauf hingewiesen wurden, dass es andere Krankenhäuser gibt, die vielleicht schon mehr Erfahrung mit SMA haben und dass es Muskelzentren in Deutschland gibt. [...] Der Arzt hat nicht gesagt: Wir können nichts machen, aber das Krankenhaus in Freiburg oder in Essen oder in München hat mehr Erfahrung mit der Krankheit, und vielleicht lohnt es sich, dort nachzufragen. Das haben wir alles selbst herausgefunden.“

„Wenn zum Beispiel ein Hilfsmittel von Ärzten empfohlen wird, können sie einem meist nicht sagen, wo man es am besten machen kann.“

Eine geringe Anzahl von Eltern berichtete über die Bereitschaft mancher Fachkräfte im Gesundheitswesen, Unsicherheiten bzgl. SMA zu kommunizieren und sich bei spezialisierten Einrichtungen oder mithilfe von Fachliteratur weiterzubilden oder zu informieren.

„Unsere Kinderärztin hat direkt von Anfang an gesagt, dass sie keine Erfahrung hat, aber sie würde uns sehr gerne helfen. Sie informiert sich wirklich, hat auch Kontakt zu einem anderen Kinderarzt, der ebenfalls ein SMA-Kind hat. Sie tauschen Informationen aus. Wir haben ein anderes Krankenhaus hier in S. Dort geben sie auch Spinraza, aber sie haben keine Typ-I-Kinder. Und unsere Kinderärztin steht auch mit diesem Krankenhaus in Kontakt und kann sich dort Informationen holen.“

„Also ich denke an unser Krankenhaus hier in der Gegend; wenn die wirklich merken: „Wir wissen nicht mehr, was wir machen sollen“, dann rufen sie [das Muskelzentrum in] Freiburg an, weil die wissen mehr über SMA und dort bekommen sie Hilfe. Aber sie kommunizieren das auch: Wir wissen nicht, was wir machen sollen, wir rufen in Freiburg an.“

(b) Subcode: Fachwissen und Fertigkeiten aufseiten der Eltern

Dieser Subcode beschreibt in erster Linie das „Hineinwachsen“ in eine Expertenrolle, von dem die Befragten berichteten. Ein großer Anteil der Eltern beschreibt, dass sie sich Wissen über die Krankheit und über Versorgungsmöglichkeiten aneignen müssen. Dieses Fachwissen entsteht vor allem durch Erfahrung und durch Netzwerke, wie die Deutsche Gesellschaft für Muskelkranke e.V. oder ähnliche.

„Aber, wie gesagt, kaum jemand weiß etwas darüber. Wir sind selbst die SMA-Experten geworden.“

„Wir wissen heute, wenn ein Kind SMA hat und eine Infektion, dann muss es eigentlich beatmet werden. Das haben wir am Anfang nicht gewusst. Das ist alles so eine Kette von Ereignissen. Ja, jetzt sind wir schlauer und wissen alles. Aber damals wussten wir das noch nicht.“

„Und vor allem sind wir Eltern immer noch in SMA-Deutschland organisiert, in der Deutschen Muskelstiftung. Und wir treffen uns eigentlich jedes Jahr dort, auch mit den Ärzten. Da kriegt man die Informationen, vernetzt sich sehr, sehr stark mit anderen Eltern und mit den Ärzten, die bei dem Treffen dabei sind. Und dann muss man sich selbst auf den Weg machen und sich letztendlich um die Therapie kümmern.“

Koordinationsstruktur

Dieser Code beschreibt die Bedeutung von Mechanismen, die explizit für die Behandlungscoordination von Patient*innen mit SMA entwickelt wurden. Er besteht aus zwei Subcodes: (a) die Beschreibung und Bewertung bereits bestehender Koordinationsmechanismen sowie (b) den wahrgenommenen Bedarf an neuen Koordinationsmechanismen.

(a) Subcode: Bestehende Koordinationsmechanismen

Dieser Subcode diene der elterlichen Beschreibung und Bewertung der bestehenden Mechanismen zur Koordination von Aktivitäten zwischen den beteiligten Akteur*innen des Versorgungsnetzes. Dabei handelt es sich sowohl um einmalige als auch um kontinuierliche Koordinationsmechanismen. Die größte Komponente innerhalb dieses Subcodes stellt die Terminkoordination dar. In diesem Zusammenhang berichteten die Befragten auch über vorhandene Unterstützung bei der Koordination und Organisation der Versorgung (z.B. „Hilfsmittelberatung“ im SPZ, Übernahme von Aufgaben durch den häuslichen Pflegedienst). Einige Eltern beschrieben die Existenz einer bestehenden, kontinuierlichen Anlaufstelle (z.B. Sozialdienst des Krankenhauses), die Termine im Krankenhaus koordiniert.

„Es entlastet mich sehr, dass Frau W. alle Termine organisiert. Wenn ich zum Beispiel sage, dass ich das nächste Mal mit dem Orthopäden sprechen möchte; oder drei Monate vor dem Termin sage ich, wir haben Probleme mit dem Magen - dann organisiert sie die Termine. Ich muss die Ärzte nicht einzeln anrufen und nach Terminen fragen. Wenn ich einen Platz im Elternhaus [des Muskelzentrums Freiburg] brauche, regelt sie das auch. Wir müssen wirklich nur vorher sagen, was die Probleme sind, und alles wird für den nächsten stationären Termin organisiert.“

Die zweite Komponente innerhalb dieses Subcodes ist die Beschreibung von strukturellen Verbindungen zwischen den Fachkräften, die eine zeitnahe Koordination im Versorgungsnetz ermöglichen. In diesem Zusammenhang berichteten Eltern über „Connections“ zwischen Fachkräften des Gesundheitswesens, die z.B. die Einschreibung in ein Härtefallprogramm erleichterten oder Hausbesuche durch einen häuslichen Pflegedienst ermöglichen. Nur ein kleiner Anteil der Eltern berichtete von einem direkten Austausch zwischen den einzelnen Akteur*innen des Versorgungsnetzes.

„Der Neuropädiater hat dann bestätigt, dass es SMA ist. Und wir haben ihm das gesagt: Wir haben schon einen Termin in [dem Muskelzentrum] Freiburg, und er hat dann seine Verbindungen genutzt und hat uns für dieses Härtefallprogramm anmelden lassen, weil zu dem Zeitpunkt war das Medikament noch nicht offiziell zugelassen.“

„Ich würde sagen, die einzige Therapeutin, die ein bisschen mehr mitdenkt und kooperiert, ist die Therapeutin im Kindergarten. Sie hat uns zum Beispiel Kontakte zu anderen Therapeuten vermittelt, die zu uns nach Hause kommen.“

„Das SPZ aus V. hat für uns einen Termin hier [im Muskelzentrum Freiburg] gemacht. Wir kamen nach einem Monat oder sogar noch kürzer hierher zur Beratung. Dann ging alles ganz schnell.“

„In manchen Fällen schickt das SPZ Rezepte schon an das Sanitätshaus. Und das Sanitätshaus reicht sie dann auch bei der Krankenkasse ein.“

„L. brauchte ein Absauggerät, als er krank war und die Kinderarztpraxis hat schnell alles mit [dem Muskelzentrum in] Freiburg geklärt. Wir haben schnell ein Rezept bekommen und das Absauggerät war schnell da.“

Die letzte, weniger häufig genannte Komponente innerhalb der bestehenden Koordinationsmechanismen sind lineare, einseitige Informationskanäle zu SMA (z.B. ein Newsletter per E-Mail). Diese dienen der Behandlungskoordination vor allem durch das Aufzeigen von bisher unbekanntem Versorgungsmöglichkeiten.

„Und es gibt verschiedene Hilfsorganisationen und auch ein SMA-Forum, die regelmäßig Newsticker per E-Mail verschicken. Und wenn man sieht, wie es mit der Medikamentenpipeline, den Medikamentenentwicklungsphasen aussieht, dann bringt einen das weiter.“

(b) Subcode: Wahrgenommener Koordinationsbedarf

Dieser Subcode umfasst Mechanismen, die von den Befragten als notwendig erachtet werden, um die Aktivitäten zwischen den beteiligten Akteur*innen des Versorgungsnetzes zu koordinieren (Van Houdt et al., 2013). Ein großer Anteil der Befragten beschrieb einen Bedarf an Unterstützung oder Entlastung beim (wiederholten) Kontakt mit einzelnen Versorgungseinrichtungen oder der Krankenkasse, z.B. bei der Beantragung von Hilfsmitteln, beim Aufbau eines Versorgungsnetzes nach der Diagnose oder bei der Terminkoordination im Muskelzentrum. In diesem Zusammenhang erwähnten sie zudem den Wunsch nach einer „Schnittstelle/Brückenfunktion“ im Versorgungsnetz sowie an Kontinuität innerhalb der Versorgung (Haggerty et al., 2003; Van Houdt et al., 2014). Zur besseren Koordination wünschten sich die Eltern einen kontinuierlichen Ansprechpartner, der über medizinisches Fachwissen verfügt und sie bei medizinischen Gesprächen unterstützt. Darüber hinaus wünschten sie sich einen fachlichen Austausch innerhalb des Versorgungsnetzes hinsichtlich der Versorgung des Kindes.

„Ganz am Anfang der Diagnose, als wir zum ersten Mal in F. waren, wussten wir sehr wenig über diese Krankheit. Vielleicht wäre es gut gewesen, einfach Informationen über diese Krankheit zu erhalten. Vielleicht auch darüber, was passieren kann - dass SMA-Kinder zum Beispiel häufiger an Skoliose leiden - was die nächsten Schritte sind, wie man vorgeht, was man bei bestimmten Dingen tun kann. Zum Beispiel, wenn die Kinder krank sind, dass es etwas Besonderes zum Inhalieren gibt. Einfach präventive Dinge. Das hat uns sehr gefehlt. Das haben wir alles aus unserer WhatsApp-Gruppe.“

„Wenn es jemanden gäbe, den ich immer anrufen könnte und sagen könnte: So Frau oder Herr so-und-so, mein Kind braucht Orthesen. Dass jemand danach sucht, und dass man eine perfekte Firma findet, die sich darum kümmert. Dass wir nicht immer zwei/drei Monate warten müssen, bis überhaupt etwas gemacht wird – sondern dass das einfach läuft.“

„Und das bedeutet eigentlich zwei Nächte, zwei volle Tage [stationärer Aufenthalt im Muskelzentrum]. Was macht der andere Elternteil? Also wo darf man übernachten? Wo darf man parken? Hat man Anspruch auf Fahrtkosten? Also vielleicht ein paar Tipps.“

„Vielleicht könnten sie sich besser ergänzen – dass z.B. die Ergotherapeutin für die Feinmotorik zuständig ist und die Physiotherapeutin sorgt dafür, dass es keine Kontraktionen gibt. Vielleicht können sie sich austauschen, damit es noch effektiver ist.“

„Für uns wäre es wichtig, dass die Versorgungswege kurz sind. Dass ich im Idealfall Termine kombinieren kann und wir zwei oder drei Ärzte gleichzeitig konsultieren können. Gerade im

Bereich der Orthopädie und Neuropädiatrie, dass es da z.B. eine enge Abstimmung gäbe. Denn die Neuropädiatrie kennt sich mit SMA gut aus, die Orthopädie mit dem Skelett. Eine enge Zusammenarbeit zwischen diesen beiden Fachrichtungen haben wir noch nicht gefunden.“

„Es wäre eine Möglichkeit, dass es eine einzige Person gibt, die L. von Anfang an kennengelernt hat. Dass es dann eine einzelne Person gibt, mit der man sich auch sehr viel austauscht und in die man sehr viel Vertrauen hat. Dass es eine solche Person gibt, die einen Überblick hat, die weiß, was L. für Fähigkeiten hat, wie L. gelagert werden muss.“

Ein kleiner Anteil der Befragten berichtete von einem Bedarf an einheitlicheren Behandlungsstandards. Diesbezüglich wünschten sich die Eltern kohärente Behandlungsempfehlungen von den beteiligten Fachkräften. Eine Person erwähnte die Möglichkeit, Informationen zu bündeln, z. B. in einem umfassenden Nachschlagewerk für SMA einschließlich sozialrechtlicher Aspekte.

„Es gibt eine Menge Informationen, die man sich selbst beschaffen muss. Ich bin in der Patientenvertretung tätig und kenne kein Dokument, in dem alles enthalten ist. Ich meine, es gibt natürlich Broschüren, aber es gibt jetzt keine Checkliste oder keinen Leitfaden: Stand der häuslichen Pflege, Grad der Behinderung und so weiter. Das wäre am Anfang sicherlich hilfreich. Selbst wenn es so etwas gibt, ist die Frage, ob es verteilt wird oder ob man sich die Infos noch selbst suchen müsste.“

„Ich habe den Eindruck, gerade im Bereich der SMA gibt es keinen Leitfaden oder roten Faden, der irgendwo etabliert ist, wo man sich von einem Orthopäden zum anderen Orthopäden austauscht. Ich denke, es wird zu viel individuell gemacht. Ich denke, man sollte doch mehr ... nicht standardisieren, aber man könnte mehr voneinander lernen.“

Informationsaustausch

Dieser Code beschreibt den (nicht) vorhandenen aktiven, kommunikativen und gegenseitigen Austausch von Informationen, Ideen und Meinungen zwischen den Akteur*innen des Versorgungsnetzes (Van Houdt et al., 2013). Wir haben drei verschiedene Subcodes unterschieden: (a) Informationsaustausch zwischen Eltern und Fachkräften, (b) Informationsaustausch zwischen Eltern, (c) (wahrgenommener) Informationsaustausch zwischen Fachkräften.

(a) Subcode: Informationsaustausch zwischen Eltern und Fachkräften

Ein großer Anteil der befragten Eltern gab an, (un-)regelmäßig gemeinsam mit den am Versorgungsnetz beteiligten Fachkräften potentielle Versorgungsoptionen zu diskutieren. Diese Besprechungen umfassten zum einen Behandlungsempfehlungen durch die Fachkräfte. Zum anderen präsentierten die Eltern Informationen, die sie z.B. durch vorherigen Austausch mit anderen Betroffenen auf SMA-spezifischen Plattformen erhalten haben.

„Der Austausch zwischen der Station und der Intensivstation hat gut funktioniert. Teilweise gab es runde Tische, an denen wir mit glaube ich fünf verschiedenen Oberärzten und Therapeuten saßen. Jeder wurde eigentlich regelmäßig hinzugezogen.“

„Das Rollstuhlgestell ist ein Standardgestell und die Sitzschale oben drauf ist eine Spezialkonstruktion. Der Orthopädietechniker hat sich mit dem Hersteller des Rollstuhluntergestells in Verbindung gesetzt und sehr oft mit uns Rücksprache gehalten und alles überprüft, ob es richtig ist.“

„Wir hatten Fälle, bei denen wir ein Problem mit der Hygiene hatten [...]. Wir wollten die Intensivstation nicht verlassen, weil auf der Normalstation Dinge passiert waren, bei denen wir uns nicht sicher fühlten. Es wurde sofort gehört, man traf sich mit der Pflegedienstleitung, mit allen möglichen Leuten. Man hat offen darüber gesprochen, sodass alle das gleiche Verständnis hatten.“

Ein großer Anteil der Befragten berichtete von wahrgenommener Inkonsistenz oder Unsicherheit bei den Behandlungsempfehlungen verschiedener Fachkräfte.

„Es gibt unterschiedliche Meinungen von verschiedenen Leuten. Mein Kind hat Probleme mit seiner Hüfte. Jetzt muss ich mich mit vier verschiedenen Ärzten zusammensetzen. Der eine sagt dies und der andere das. Ich weiß selbst nicht, was richtig und was falsch ist.“

„Wir hatten auf der einen Seite die Meinung, die Operation ist dringend und andere haben gesagt, solange keine Schmerzen da sind, brauchen wir keine. Dann haben wir überlegt: Wie beurteilt man das jetzt als Eltern? Welchen Weg gehen wir?“

„Wenn man das Gefühl hat, dass irgendeine Behandlung nicht optimal gelaufen ist oder ein Hilfsmittel nicht genau passt, dann bekommt man nie eine so klare Meinung von Experten: Das ist schlecht, und das ist besser. Das kommt dann eher von anderen Eltern. Aber die Experten bestätigen das nie.“

„Ich bin mit meinem Kind zur Logopädin gegangen und sie hat mir ein paar Tipps gegeben, weil ich mir tatsächlich Sorgen ums Essen, ums Schlucken gemacht habe. Sie meinte, wir könnten das Getränk andicken. Dann hatten wir einen Termin in [dem Muskelzentrum] Freiburg bei der Logopädin und sie sagte, das wäre genau das Gegenteil, denn je mehr man es andickt, desto schwieriger wird es.“

Ein großer Anteil der Eltern betonte zudem den Wunsch, stärker in bestimmte Versorgungsprozesse eingebunden zu werden (z.B. in Debatten über die Zulassung neuer Therapien, Herstellung individueller Hilfsmittel).

„Ich denke, dass man nicht zu wenig Unterstützung bekommt, sondern zu wenig Infos. Wegen neuer Medikamente zum Beispiel; dass man zu wenig Informationen bekommt. Dass man dem auch ein bisschen hinterherlaufen muss.“

„Das Zusammenspiel ist uns noch nicht so klar. Zum Beispiel mit dem Korsett unserer Tochter: Es sollte eine besondere Form eines Korsetts sein. Sie sagten: "Ihre Tochter wird es nicht mögen, sie muss es 24 Stunden am Tag tragen." Dann sind wir zum Orthopädietechniker gegangen, der hat gesagt: „So ein Korsett ist es doch nicht, wir nehmen ein anderes, wir reden noch mal mit den Orthopäden.“ Plötzlich kam etwas Anderes heraus – es ging an uns vorbei, ohne dass wir jemals das Gefühl hatten, dass wir beteiligt waren oder dass wir richtig aufgeklärt wurden.“

„Also ich denke, es ist wichtig, dass wir als Eltern angesprochen werden und dass wir im Austausch bleiben, weil sonst die Informationen irgendwo hängen bleiben. Als Elternteil möchte ich auch im Gespräch bleiben und zu einem besseren Ergebnis beitragen können.“

(b) Subcode: Informationsaustausch zwischen Eltern

Dieser Subcode umfasst zwei Hauptthemenbereiche: Zum einen berichteten die Befragten von einem Informationsaustausch über die Versorgung, der sich auf die Versorgungsmöglichkeiten, die Qualität der Versorgungseinrichtungen, Folgeerkrankungen, Neuigkeiten im Bereich der SMA usw. bezog. Darüber hinaus gab es einen Austausch über das alltägliche Leben und die mit der chronischen Erkrankung verbundenen Belastungen (z.B. durch häusliche Pflege o.ä.). Viele Eltern beschrieben die gegenseitige emotionale Unterstützung unter betroffenen Familien.

Kanäle des Austauschs waren Selbsthilfegruppen oder größere Verbände (z.B. Konferenzen der Deutschen Gesellschaft für Muskelerkrankungen) und digitale Plattformen (z.B. WhatsApp, Facebook), die einen dynamischen, wechselseitigen Austausch unter den Eltern gewährleisteten.

„Ich habe versucht, mit anderen Eltern zu sprechen, um zu fragen, was sie mit ihren Kindern machen, wie der Alltag bei ihnen abläuft.“

„Man könnte mehr voneinander lernen... das machen eigentlich die Eltern untereinander: „Oh, ich habe hier ein tolles Korsett gesehen!“ „Oh, ich war hier zur Reha, das war toll für mein Kind!“ Quasi das private, persönliche Netzwerk - das ist eigentlich auch der Weg, wie man sehr weit kommt.“

„Ich war so verzweifelt und ich habe mich an andere Mütter gewandt, die zum Beispiel über Facebook das mit ihren Kindern öffentlich gemacht haben und die mir dann geholfen haben. Ohne die Netzwerke wären wir untergegangen, weil wir vorher noch nie etwas von einem Therapiestuhl gehört hatten oder welche Hilfsmittel es überhaupt gibt.“

„Und auch die praktischen, alltäglichen Dinge - vieles kommt von anderen Familien, was man nicht direkt von den Ärzten oder Pflegekräften bekommen kann, weil die nicht in den Alltag eingebunden sind. Das ist ein sehr großer Anteil der Koordinationsarbeit, dass man mit anderen Betroffenen spricht und alles selbst recherchiert.“

„Wir sind immer sehr froh, wenn der Austausch in M. stattfindet. Das wird von der Deutschen Gesellschaft für Muskelerkrankungen gemacht und von einer großen Krankenkasse aus Deutschland gesponsert. Wir nehmen in den Vorträgen an den zwei Tagen so viele Informationen auf. Das ist eigentlich das Wichtigste für uns.“

(c) Subcode: (Wahrgenommener) Informationsaustausch zwischen Fachkräften

Die Befragten berichteten über einen wahrgenommenen heterogenen Informationsaustausch zwischen den am Versorgungsnetz beteiligten Fachkräften. In einigen Fällen beschrieben die interviewten Eltern einen Mangel an Zusammenarbeit zwischen den an der Behandlung beteiligten Fachkräften verschiedener Fachdisziplinen. Ihrer Ansicht nach sollte es einen wiederkehrenden Austausch und eine Abstimmung über den Gesundheitszustand im Sinne einer interdisziplinären Versorgungsplanung geben. Bestehende strukturelle Verbindungen zwischen den Akteur*innen des Versorgungsnetzes (z.B. lokale Nähe zwischen Versorgungsinstitutionen) würden diesen Austausch erleichtern.

„Das ist eigentlich unser großes Problem [dass es keine Kommunikation zwischen den Fachkräften gibt]. Jeder macht sein eigenes Ding. Wir haben kein Netzwerk. Wir ziehen überall die Fäden, aber irgendwie kommt nichts dabei raus.“

„Die Kommunikation zwischen den Therapeuten und den Ärzten bei uns findet nicht wirklich statt, weil wir hier vor Ort nur unsere Kinderärztin haben und die hat keine Expertise bezüglich SMA. [...] Wenn wir Bedenken haben, was seinen körperlichen Zustand angeht, melden wir uns vorher in [dem Muskelzentrum] Freiburg und dort werden diese dann untersucht. Aber es gibt keinen Austausch mit unserem Physiotherapeuten.“

„Generell könnten man überlegen, ob ein bisschen mehr Austausch zwischen den Therapeuten sinnvoll wäre. Denn wenn in der Logopädie etwas sprachlich auftaucht, könnten die anderen Therapeuten das irgendwie berücksichtigen. Das könnte man auf jeden Fall verbessern, dass so etwas Standard ist, dass man sich irgendwie halbjährlich zu Beginn der Behandlung kurzschleift und dann vielleicht ein-, zweimal im Jahr.“

„Physiotherapie und Ergotherapie haben relativ kurze Wege, die kennen sich. Sie haben sich darauf geeinigt, dass der eine sich mehr um die Feinmotorik, die Hände und den Oberkörper kümmert und der andere mehr um das Sitzen, das Gehen und die Arbeit an den Muskeln in diesem Bereich. Sie haben sich auch koordiniert und sie telefonieren. Es gibt auch kurze Berichte an den Hausarzt, damit er ein neues Rezept ausstellen kann.“

Ein großer Anteil der Befragten beschrieb die Notwendigkeit des Austauschs von bereits durch die Eltern gegebenen Informationen innerhalb des Versorgungsnetzes. Laut den interviewten Eltern sollten die Fachkräfte Informationen weitergeben, die nicht in ihren Zuständigkeitsbereich fallen, damit die Eltern sie bei weiteren Konsultationen nicht wiederholen müssten.

„Die Physiotherapeutin aus dem SPZ sagte, dass sie Herrn W. aus dem Sanitätshaus kennt und ihn anrufen und ihm von den Schuhen erzählen wird. Das macht es einfacher, dass die Experten miteinander reden können. Aber das ist eine Ausnahme, würde ich sagen.“

„Ich muss die Physiotherapeutin anrufen und fragen, ob sie sich darum kümmert. Dann muss ich wieder bei der Krankenkasse anrufen. Dann muss ich mir eine Firma suchen, die das macht. Ich muss alles selbst in die Hand nehmen.“

„Ich habe beim Kinderarzt angesprochen, dass er nicht so viel zunimmt. Dann hat er sofort [das Muskelzentrum] Freiburg kontaktiert und jetzt war die Ernährungsberatung da, also die Koordination und das Verständnis ist super.“

„Soweit ich das bisher gesehen habe, gibt es keine direkte Kommunikation zwischen den Fachkräften vor Ort und den Fachkräften im Muskelzentrum Freiburg. Wir bringen die Informationen aus Freiburg mit und geben sie an unsere Ärzte vor Ort weiter oder umgekehrt.“

Einige Befragte nannten das digitale SMA-Register, darunter die Datenbank SMARtCARE (Pechmann, 2017), als hilfreiches Element. Diese Plattformen sammelten SMA-spezifische Daten und machen sie für Fachkräfte und Betroffene zugänglich.

„In diesem Portal können die Krankenhäuser gegenseitig auf ihren Therapiestatus zugreifen. Alle wichtigen Daten zu Spinraza und den Therapien sind dort hinterlegt. Und die Krankenhäuser können darauf zugreifen [...], um zu sehen, wie der Status quo der Kinder ist.“

Rollenverteilung in der Behandlungscoordination

Innerhalb des Versorgungsnetzes eines/einer SMA-Patient*in gibt es verschiedene Rollen mit unterschiedlichen Koordinationsaufgaben. Dieser Code beschreibt die Wahrnehmung dieser Rollen durch die Eltern. Es geht um die Zuweisung von Verantwortlichkeiten und Aufgaben durch die Eltern an die Fachkräfte, im Sinne von „Wen brauche ich wofür?“; „Wer ist wofür verantwortlich und sollte was übernehmen?“. Die Befragten beschrieben auch ihre eigene Rolle im Versorgungsnetz. Insgesamt unterteilten wir den Code in fünf Subcodes entsprechend den am häufigsten genannten Akteur*innen im Versorgungsnetz: (a) Rolle des/der Kinderarztes/Kinderärztin, (b) Rolle des Muskelzentrums, (c) Rolle der lokalen Versorgenden, (d) Rolle des SPZ/Frühförderzentrums, (e) Rolle der Eltern.

(a) Subcode: Rolle des/der Kinderarztes/Kinderärztin

Der Kinderarzt/die Kinderärztin spielt eine besondere Rolle im Versorgungsnetz von SMA-Patient*innen, da die Primärversorgung überwiegend von niedergelassenen Kinderärzt*innen geleistet wird. Der/die Kinderarzt/Kinderärztin war häufig die erste Anlaufstelle (insbesondere zum Zeitpunkt der Diagnosestellung). Die befragten Eltern gaben jedoch unterschiedliche Rollenzuschreibungen in Bezug auf ihre Kinderärzt*innen an. Diese lassen sich in zwei Komponenten unterteilen, die nach elterlicher Auskunft unterschiedliche Auswirkungen auf die Behandlungscoordination hatten: Etwa die Hälfte der befragten Eltern beschrieb den/die Kinderarzt/Kinderärztin als eine eher passive Komponente in der Versorgung des Kindes. Aufgrund eines begrenzten Fachwissens würden sie sich bei SMA-spezifischen Fragen nicht an den/die Kinderarzt/Kinderärztin wenden, sondern ihn/sie hauptsächlich bei akuten Infektionen konsultieren (ähnlich wie bei gesunden Kindern). Einige Interviewteilnehmende beschrieben eine bewusste „Zurückhaltung“ des/der Kinderarztes/Kinderärztin bei SMA-bezogenen Fragen in dem Wissen darüber, dass das Muskelzentrum mit mehr Fachwissen zur Verfügung stand. Zusätzlich berichtete ein kleiner Anteil der Befragten, dass der/die Kinderarzt/Kinderärztin eine eher verzögernde Komponente in der Behandlungscoordination darstellte.

„Der Kinderarzt unterschreibt nur die Rezepte, die ich brauche. Ansonsten hat ihn zum Beispiel der Kardiologe angerufen, um zu fragen, warum er S. zu einer kardiologischen Untersuchung schickt. Er sagte: "Ich weiß es nicht". Ich denke mir: "Okay, lesen Sie denn nicht die Ihre Arztbriefe? Das Kind hatte bei seiner Geburt ein Loch im Herzen. Sie musste alle sechs Monate untersucht werden, weil sie beatmet werden musste. Wenn ich also meinem Kinderarzt sagen muss, was los ist, dann kann das eigentlich nicht wahr sein.“

„Wenn das Kind auf die Welt kommt und die ersten Auffälligkeiten im Vergleich zur Entwicklung eines anderen Kindes festgestellt werden... Das wird immer verharmlost, man wird ein bisschen als Helikoptereltern dargestellt, aber man soll sich auf die Ärzte verlassen und bekommt gesagt: „Es ist alles in Ordnung.“ Bis man dann tatsächlich an den Punkt kommt, an dem es so drastisch ist, dass nicht mal der schlechteste Arzt im Dorf die Symptome leugnen kann.“

Die andere Hälfte der befragten Teilnehmenden nahm den/die Kinderarzt/Kinderärztin als unterstützende Komponente in der Behandlungscoordination wahr. Sie bezeichneten ihn/sie

als eine/n geeigneten Ansprechpartner*in, der/die aufgrund der lokalen Nähe zum Wohnort. Ein kleiner Anteil der Eltern berichtete, dass der/die Kinderarzt/Kinderärztin ihnen entgegenkam, z. B. indem durch Rezeptausstellungen, verkürzte Wartezeiten oder Hausbesuche.

„Wir haben eine gute Kinderärztin, die mir bei alltäglichen Dingen immer helfen kann. Ich denke, sie ist die erste Anlaufstelle.“

„Ansonsten ist der Kinderarzt eine große Hilfe für uns. Wir rufen an und sagen, wir brauchen ein Rezept für XY und dann sagt er: „Holen Sie es morgen ab.“ Also das funktioniert sehr gut, wir sind sehr zufrieden.“

„Ich kann mit dem Kinderarzt offen über alles reden. Die Termine werden immer mit weniger Wartezeit für D. und mich gemacht. Manchmal rufe ich noch mal an und frage, wie voll es ist, dann sagt er mir: „Frau Z., Sie können etwas später kommen.““

(b) Subcode: Rolle des Muskelzentrums

Muskelzentren bieten eine fachkundige Diagnose und Behandlung für neuromuskuläre Erkrankungen, einschließlich SMA. Sie bestehen in der Regel aus Neurolog*innen oder Neuropädiater*innen, die interdisziplinär mit Kardiolog*innen, Pulmolog*innen, Orthopäd*innen, Rheumatolog*innen, Physiotherapeut*innen und Sozialberater*innen zusammenarbeiten. Aufgrund des hohen Fachwissens über SMA bezeichnete die Mehrheit der befragten Eltern das Muskelzentrum als Hauptansprechpartner in der Versorgung ihres Kindes.

„Also wenn es um SMA geht, ist nur [das Muskelzentrum] Freiburg mein Ansprechpartner.“

„Wenn es um spezifische SMA-Informationen geht, ist [das Muskelzentrum] Freiburg die richtige Anlaufstelle, weil sie dort einfach am besten informiert sind. Die kennen die Krankheit, den Verlauf und die Forschung.“

Da es sich bei dem Muskelzentrum in der Regel um eine größere (Universitäts-)Klinik handelt, beschrieben die befragten Eltern damit verbundene Vor- und Nachteile. Aufgrund der vielen spezialisierten Fachabteilungen erhielten SMA-Patient*innen in Muskelzentren eine umfassende Versorgung. Gleichzeitig befürchteten die Eltern aufgrund der Größe des (Universitäts-)Krankenhauses und den damit verbundenen begrenzten Ressourcen eine unzureichende Überwachung des Gesundheitszustands und des Versorgungsbedarfs des Kindes. Ein kleiner Anteil der Eltern berichtete von einem Informationsverlust aufgrund einer möglichen Verantwortungsdiffusion. Nach Ansicht der befragten Teilnehmenden wirkte sich dies verzögernd auf die Behandlungskoordination aus.

„Das ist das, was die Ärzte wollten, und es kam uns auch sehr entgegen, dass man nicht nur das Medikament gibt, sondern auch alles anschaut und die ganze Versorgung in einem Krankenhaus hat. Seitdem läuft es ganz gut. Wir sehen auch nicht die Notwendigkeit, etwas zu ändern.“

„Mein Pflegedienst war auch verärgert und hat gesagt: „Das kann doch nicht wahr sein. Wir haben die Punkte für sie aufgeschrieben. Wir haben ihnen ausdrücklich gesagt, dass sie darauf

achten sollen. Warum haben sie [das Team des Muskelzentrums] das nicht gemacht?“ Das Problem ist die Zeit. Sie können es nicht richtig sortieren oder koordinieren.“

(c) Subcode: Rolle der lokalen Versorgenden

Dieser Code fasst die Rolle der lokalen Versorgenden zusammen. Der Begriff „lokal“ bezieht sich auf die Nähe der Leistungserbringer zum Wohnort der Patient*innen und ihrer Familien. Dazu gehörten alle Angehörigen der Gesundheitsberufe, die an der Versorgung von Patient*innen mit SMA beteiligt sind (z.B. Physiotherapie, Ergotherapie, Logopädie, häusliche Pflegedienste, Sanitätshäuser/Orthopädietechnik, lokale Krankenhäuser). Aufgrund der Wohnortnähe und des daraus resultierenden wiederkehrenden (wöchentlichen) Kontakts bezeichnete ein großer Anteil der befragten Eltern die lokalen Versorgenden als „ständige Begleitung“ während der Erkrankung. Sie verfügten über ein kontinuierlich aktualisiertes Wissen hinsichtlich des Gesundheitszustands des Kindes und würden somit zu einer unterstützenden Komponente innerhalb der Behandlungskoordination. Viele der befragten Teilnehmenden berichteten, dass sie geeignete Therapien oder Hilfsmittel gemeinsam mit den lokalen Versorgenden besprachen. Ein kleiner Anteil der Befragten berichtete von einer Entlastung durch die Abnahme koordinativer Tätigkeiten (z. B. Telefonate mit der Krankenkasse). Gemäß der Mehrheit der Befragten erfüllten die lokalen Versorgenden die Rolle des Bindeglieds zwischen dem Muskelzentrum und den Familien. Sie erstatteten regelmäßige, detaillierte Berichte zur Information der übrigen Akteur*innen des Versorgungsnetzes und unterstützten die Eltern aufgrund ihres medizinischen Fachwissens bei der Kommunikation mit den Fachkräften.

„Unsere Physiotherapeutin hat uns von Anfang an begleitet. Sie kennt uns jetzt seit drei Jahren, also kennt sie S., seit sie sechs Monate alt war. Ich würde sagen, sie hat uns bei unserem Abstieg und bei unserem Aufstieg begleitet.“

„Die Therapeuten vor Ort helfen uns, wenn wir Hilfsmittel brauchen. Das ist sehr wichtig.“

„Manchmal nehmen sie [der Pflegedienst] mir Dinge ab. Sie telefonieren nur kurz mit dem Kinderarzt, wenn es um Rezepte oder so geht.“

„Wir haben ein sehr gutes Sanitätshaus. Wir testen eigentlich alles im Vorfeld und wenn wir damit gut zurechtkommen, muss ich nur ein Rezept besorgen, es bei denen einreichen und die kümmern sich um alles andere. Die sind auch sehr kompetent.“

„Die Therapeuten, die meine Tochter jede Woche sehen, merken wahrscheinlich fast genauso viel wie ich. Sie sind mehr in den Alltag eingebunden als Ärzte oder Spezialisten.“

Ein kleiner Anteil der befragten Eltern beschrieb jedoch insbesondere das Sanitätshaus als potenziellen Verzögerungsfaktor innerhalb der Behandlungskoordination (z.B. durch unzureichende oder verzögerte Anfertigung benötigter Hilfsmittel).

„Gute Sanitätshäuser sind leider zu selten. Menschen, die wirklich motiviert sind und sich mit Herzblut für die Kinder einsetzen. Manchmal braucht man auch ein bisschen Fantasie und ein bisschen Tüftelei. Man muss sich ein bisschen in die Kinder hineindenken und sich mit den Eltern austauschen.“

„Wir haben ein Rezept für eine angepasste Sitzschale bekommen. Wir sind zu einem Sanitätshaus in unserer Gegend gegangen und unsere Tochter wurde vermessen. Dann passierte einen Monat lang nichts. Ich habe einmal dort angerufen: Sie hatten immer noch nichts von der Krankenkasse. Ein paar Tage später teilte mir die Krankenkasse mit, dass sie den Antrag erst erhalten hatte, nachdem ich das Sanitätshaus daran erinnert hatte. Plötzlich wurde aus der Sitzschale ein Therapiestuhl. Ich rief das Sanitätshaus an und die sagten mir, dass es dasselbe sei. Sie brachten dann einen Therapiestuhl ohne kompetentes Personal, das ihn hätte einstellen können. Zwei Wochen später kam ein Techniker zurück und stellte fest, dass der Therapiestuhl für unsere Tochter zu groß war.“

(d) Subcode: Rolle des SPZ/Frühförderzentrums

Interdisziplinäre Sozialpädiatrische Zentren (SPZ) versorgen Kinder und Jugendliche mit Entwicklungsstörungen und chronischen Erkrankungen durch diagnostische und/oder therapeutische Leistungen. Frühförderzentren sind Einrichtungen, die Kindern mit Behinderungen in den ersten Lebensjahren pädagogische und/oder medizinisch-therapeutische Hilfe anbieten (oft einschließlich spezieller Therapien wie Ergotherapie, Physiotherapie, Logopädie usw.). Dieser Code fasst die Rolle beider Einrichtungen zusammen, da die befragten Eltern das SPZ und die Frühförderstelle mit ähnlichen Aufgabenbereichen im Rahmen der Behandlungskoordination in Verbindung bringen.

Nach Angaben der Mehrheit der befragten Eltern dienten beide Einrichtungen als Ansprechpartner beim Aufbau eines lokalen Versorgungsnetzes. Sie konnten Empfehlungen zu häuslichen Pflegediensten in der Nähe des Wohnortes der Eltern und zu Fachärzten für die weitere Behandlung geben. Ähnlich wie die lokalen Versorgenden entlasteten sie die Eltern von koordinierenden Aufgaben (z. B. Übernahme der Korrespondenz mit der Krankenkasse; Hilfsmittelberatung). Insbesondere das SPZ bot eine kontinuierliche Anlaufstelle für SMA-spezifische Fragen, da das Muskelzentrum oft schwieriger zu erreichen war.

„Das SPZ schickt einige der Rezepte schon an das Sanitätshaus.“

„Bei Hilfsmitteln machen wir alles über das Frühförderzentrum. Die haben verschiedene Sanitätshäuser in der Umgebung ausprobiert und wissen, welches das Beste ist. Sie haben eine Mitarbeiterin, die sich nur um Hilfsmittel für kümmert. Und die ist immer da.“

„Wir gehen einmal im Quartal ins SPZ zur Hilfsmittelberatung. Dort prüfen sie: Was ist die aktuelle Pflegestufe von E.? Wir haben zum Beispiel vor einiger Zeit ein Korsett bekommen. Das wird regelmäßig überprüft: Passt es noch oder muss es angepasst werden? Muss ein neues Korsett verschrieben werden? Natürlich können wir jederzeit Nachfragen stellen: Ist es möglich, die Versorgung generell zu erweitern? Zum Beispiel ein Rollstuhl oder Therapiestuhl für zu Hause. Etwa alle sechs Monate macht das SPZ eine kinderorthopädische Sprechstunde, da kommt jemand aus einem Stuttgarter Krankenhaus und schaut sich den Knochenbau von E. an und auch die muskuläre Entwicklung im Allgemeinen.“

Darüber hinaus berichtete ein kleiner Anteil der Befragten von Unterstützung durch beide Einrichtungen im Hinblick auf die Stärkung des Krankheitsmanagements, indem beispielsweise psychologische Unterstützung oder Unterstützung bei Therapien zu Hause angeboten wurde.

„Also das Frühförderzentrum ist ganz okay, der Therapeut war nett und freundlich, hat mir viele Sachen gezeigt, wie ich mit dem D. umgehen kann, wie ich mit ihm zu Hause noch Gymnastik machen kann, Physio und Stretching. Er hat mir alles gezeigt.“

(e) Subcode: Rolle der Eltern

Gemäß ihren Aussagen spielten die Eltern eine essentielle Rolle innerhalb der Behandlungscoordination ihrer chronisch erkrankten Kinder. Alle Interviewteilnehmenden berichteten, dass sie einen Gesamtüberblick über den Gesundheitszustand des Kindes hatten. Sie gaben an, dass dies mit der Versorgungskoordination und -organisation zusammenhing, die manchmal ausschließlich in ihren Verantwortungsbereich fielen. Durch ein regelmäßiges Monitoring des Gesundheitszustands bemerkten die Eltern Veränderungen im Gesundheitszustand unmittelbar. Den befragten Teilnehmenden zufolge war es ihre Aufgabe, das Fachpersonal auf kritische Zustände aufmerksam zu machen. Sie berichteten, dass sie als Informationsträger fungierten und Informationen zwischen den Akteur*innen des Versorgungsnetzes weitergaben.

„Der Informationsfluss muss irgendwo stattfinden und er läuft immer über uns Eltern. Wenn wir im Krankenhaus sind, geben wir die Informationen an die Physios weiter, an das Sanitätshaus, an den Pflegedienst. Wenn sich der Krankheitszustand von A. wieder geändert hat oder sich die Medikation geändert hat, musste ich jeden einzelnen informieren, der hier bei uns reingekommen ist.“

„Ich habe auch das Gefühl, dass man als Eltern alles durchschauen und immer wissen muss, was auf einen zukommt. Die Ärzte helfen schon, aber z.B. bei der Beatmungskontrolle: Ich habe gesagt: „Ich glaube, die Maske ist schon zu klein“ und dann haben die Ärzte geschaut und festgestellt: „Ja, leider ist sie zu klein.“ Aber wenn ich das nicht angesprochen hätte, wäre es vielleicht nicht so schnell aufgefallen. Ich glaube, dass die Eltern die Kinder jeden Tag sehen und alles viel früher bemerken als die Experten, die die Kinder nur an einem Tag für eine Stunde sehen. Die Eltern sprechen viel selbst an und beobachten und organisieren.“

„Wir dienen oft als Informationsträger. Das heißt, wir tragen die Informationen vom Physiotherapeuten zum Orthopäden, vom Orthopäden zum Ergotherapeuten und zum SPZ.“

„Es läuft alles über uns als zentrale Schnittstelle. Das heißt, meine Frau koordiniert alles, was im Laufe des Tages ins Haus kommt. Alles, was längerfristig koordiniert werden muss, koordiniere ich am Telefon.“

„Die Eltern werden immer gefragt, wie sie das sehen, wie sie das einschätzen. Sie sind schon ein bisschen Experten.“

Ein wesentlicher Bestandteil der Rolle der Eltern war nach Angaben aller Befragten die eigenständige Recherche und Organisation von Versorgungsmöglichkeiten. Dies erfolgte vor allem über das Internet, Reha- oder SMA-spezifische Veranstaltungen und den Austausch mit anderen Betroffenen. Sie berichteten, dass sie eine eigene Bewertung der gefundenen Versorgungsmöglichkeiten vornahmen und (Zweit-)Meinungen von Fachkräften aus dem Gesundheitswesen einholten.

„Ich organisiere alles. Dass er eine schulische Betreuung hat, koordiniere Termine, schicke Arztbriefe zurück oder gehe zur Untersuchung – damit alles vorhanden ist.“

„Am Anfang hatten wir auch Infektionen mit vielen Krankenhausaufenthalten ... Wir waren unsicher und hatten keinen Hustenhelfer oder einen Pari Boy. Das sind alles Dinge, die wir uns selbst angeeignet haben. Wir haben uns mit anderen betroffenen Eltern zusammengesetzt und die haben uns gesagt: „Ihr braucht dies und das.“ Von medizinischer Seite kam nichts. Also haben wir uns schließlich selbst darum gekümmert.“

„Der Arzt im SPZ wusste, was das für eine Krankheit war. Was er nicht wusste, weil es damals noch Teil des Härtefallprogramms war, war, welche Behandlungsmöglichkeiten es gibt. Wir haben uns einfach nochmal im Internet umgeschaut: Wer ist Spezialist auf diesem Gebiet, und welche Medikamente gibt es in der Pipeline? Das führt zwar zum Ziel, aber es ist eine wahnsinnige Suche, weil man sehr intensiv Sinn und Unsinn trennen muss.“

„Wir gehen selbst auf Messen. Wir gehen auf die REHAB oder auf die REHACARE. Wir gehen zu Fachvorträgen. Wir gehen einmal im Jahr auf die SMA-Tagung. Wir sind mit der Deutschen Gesellschaft für Muskelerkrankungen verbunden. Wir sind verbunden mit der SMA-Initiative und mit dem Kinderhospiz. Wir haben mehr oder weniger die Aufgabe, die Informationen zu vermitteln. Das ruht auf unseren Schultern. Das ist mehr oder weniger unsere Verantwortung.“

Darüber hinaus beschrieb ein großer Anteil der Eltern ein generelles „am Ball bleiben“, um bestimmte Versorgungsleistungen zu erhalten (z.B. wiederkehrende Telefonate mit Pflegeeinrichtungen).

„Wir bekommen einen neuen Autositz. Die Genehmigung ist schon lange da und man hat mich nicht informiert. Oder wie bei unserem Reha-Buggy, da habe ich gesagt: „Erkundigen Sie sich bitte, ob wir Trommelbremsen dafür bekommen können, wie viel die kosten, ob man die selbst bezahlen kann oder ob man die bei der Krankenkasse beantragen kann.“ [...] Darauf habe ich auch keine Rückmeldung bekommen. Man muss ständig hinterher telefonieren.“

„Als die Nachricht kam, dass ein neues Medikament herauskommt, mussten wir viermal im Krankenhaus anrufen, um etwas darüber zu erfahren. Es hat vier Anrufe gedauert, bis der Arzt endlich zurückgerufen hat.“

„Das sind eine Menge Telefonate. Allein die Windeln waren zehn Telefonate mit den Anbietern und der Krankenkasse, bis das geklappt hat. Es funktioniert relativ gut, wenn es eingespielt ist, aber jeder neue Antrag ist der blanke Horror. Allein für S. verbringe ich etwa zwei Stunden pro Tag am Telefon.“

Qualität der Beziehung

Unter diesem Code sind Aussagen über die elterlich wahrgenommene Qualität der Beziehung zwischen den Fachkräften und der Familie zusammengefasst (Van Houdt et al., 2013). Dieser Code ist der am häufigste vertretene Code hinsichtlich aller analysierten Transkripte. Nach Angaben der Befragten lag der Fokus in erster Linie auf den vorhandenen patientenzentrierten (Kommunikations-)Fähigkeiten der Fachkräfte. Ein großer Anteil der befragten Teilnehmenden betonte den Wunsch nach Kontinuität und Kohärenz sowie der Berücksichtigung ihrer Bedürfnisse und Gefühle in Interaktionen. Die Gewährleistung einer „nahtlosen“ Versorgung würde ihnen Sicherheit im Rahmen der Behandlungscoordination vermitteln. Sie forderten die Erreichbarkeit von Fachkräften, einschließlich regelmäßiger Kontakte zur Abstimmung der Versorgung. Dabei sollten die Fachkräfte über Fachwissen

verfügen, aber auch darüber hinaus am Zustand des Kindes interessiert sein (z. B. über die aktuelle Entwicklungssituation des Kindes).

„Fünf Jahre lang waren wir immer auf der Intensivstation. Seit ein paar Monaten sind wir auf einer anderen Station. Das ist o.k., ich fühle mich dort wohler. Aber der Arzt, der uns von Anfang an kennt, der auch an der Beatmung beteiligt ist, der ist nicht mehr zu sehen. Das ist traurig, denn ich habe viel mit diesem Arzt gesprochen. Er kennt mein Kind. Er ist immer noch da. Er ist der Chefarzt. Wenn ich nach dem Arzt frage, sagen sie: „Er hat viel zu tun. Er muss dies und das machen.“ Aber mein Kind ist genauso wichtig.“

„Also sein Arzt, Doktor L., ist eigentlich ein Spezialist für diese Krankheit. Und wenn er nicht da ist, kann ich niemanden etwas fragen, zum Beispiel bzgl. eines neuen Medikaments.“

„Es kommt auch kein anderes Krankenhaus für Spinraza in Frage. Ich weiß, dass K. seit letztem Jahr auch im Kinderkrankenhaus spritzt, aber da wollen wir nicht hin und mit H. dasselbe. In [dem Muskelzentrum] Freiburg sind wir von Anfang an, die Ärzte kennen ihn, er kennt auch die Ärzte, die Schwestern und das Vertrauen ist da.“

„Ich weiß, dass Dr. L. immer da ist und er hilft immer. Wenn ich Fragen habe, kann ich anrufen und ich kann ihn immer erreichen. Das gibt Sicherheit - wenn etwas passiert, dann kann ich ihn auch anschreiben und etwas fragen.“

„Wir hatten auch häufig Kontakt mit dem Chefarzt. Er hat wirklich ein offenes Ohr für uns und hält uns auf dem Laufenden über die neuesten Entwicklungen in der Medizin und bzgl. Medikamenten. Wir bekommen immer gute Rückmeldungen und das ganze Krankenhaus und Team finden wir sehr gut. Wir fühlen uns in gut aufgehoben.“

„Es wurde einfach festgestellt, dass das Kind jetzt eine PEG oder eine Beatmung braucht. Es wurde uns nicht genau erklärt, warum oder wie. Ich würde mir wünschen, dass man sensibler mit den Eltern umgeht und genau erklärt, wozu die Beatmung da ist und dass sie dem Kind hilft. Oder dass man ein bisschen Unterstützung bekommt, vielleicht von einem Sozialdienst.“

Die befragten Eltern betonten, dass ihre Sorgen und Bedürfnisse sowie ihre Expertise hinsichtlich der Erkrankung ernst genommen werden sollten. Bezogen auf die Versorgungssituation wurde diesbezüglich ein heterogenes Bild beschrieben: In einigen Beziehungen zwischen Fachkräften und Familien gäbe es eine „vertrauensvolle Zusammenarbeit“. Das bedeutete für die interviewten Eltern, dass sich die Fachkräfte auf ihre Einschätzungen hinsichtlich des Zustands und der Versorgung des Kindes verlassen würden. Andererseits berichteten einige Befragte von Beziehungen, in denen sie ihre Expertenrolle in Bezug auf den Gesundheitszustand ihres Kindes verteidigen mussten. Sie beschrieben das Vorhandensein von „zwei Parteien“ (Familien vs. Fachkräfte). Die Interviewteilnehmenden hatten das Gefühl, für ihre gewünschten Behandlungsmethoden eintreten zu müssen oder mit Entscheidungen konfrontiert zu werden, die sie akzeptieren mussten.

„Was es noch nicht gibt, ist ein bisschen mehr Vertrauen in die Eltern [...]. Ein bisschen mehr Vertrauen zu den Eltern und vielleicht auch zu den Kindern. Das würde sicherlich sehr viel helfen.“

„Das passiert bei uns relativ oft. Im Gegensatz zu den Ärzten und Therapeuten verbringe ich Zeit mit meinem Kind. Das heißt, ich kann die Bedürfnisse eigentlich optimal einschätzen und ich bin immer dankbar, wenn die Ärzte Vorschläge von uns annehmen. Leider hatten wir in der Anfangsphase eher den umgekehrten Fall, dass wir nicht ganz ernst genommen wurden. Inzwischen ist es eigentlich so, dass die meisten akzeptiert haben, dass wir das Krankheitsbild ganz gut kennen.“

„Und der Arzt wollte uns damals keine Beatmung verschreiben, weil er sagte: „Wenn ein Kind nachts beatmet wird, dann ist es irgendwann definitiv 24 Stunden beatmet.“ Das ist immer noch den Eltern überlassen, wie sie damit umgehen wollen!“

„Das ist manchmal so - du musst wirklich um das Leben deines Kindes kämpfen. Denn wenn sie sehen, dass sie SMA hat, sind sie schon nach dem Motto: „Das Kind wird sowieso sterben. Warum sollen wir dafür kämpfen?““

„Das hängt davon ab, ob der Arzt einen ernst nimmt oder nicht. Denn es gibt „Götter in Weiß“ - denen kann man sagen, was man will; wenn sie etwas nicht hören wollen, dann spricht man gegen eine Wand. Auf der anderen Seite gibt es Ärzte, die aufmerksam werden und wenn sie nicht wissen, was sie tun sollen, dann holen sie sich wenigstens Hilfe.“

„Es ist immer schön, wenn die Kinderärzte sich ein bisschen auf die Eltern verlassen - was bei unserer Kinderärztin größtenteils funktioniert. Das ist eigentlich eine Art von Kooperation.“

„Wir waren in der orthopädischen Sprechstunde in unserem SPZ. Das war so, wie als gäbe es zwei Parteien: Ich mit meinem Kind und uns gegenüber saßen sechs oder sieben Fachkräfte aus dem SPZ: der Chefarzt, der Orthopäde, irgendein Oberarzt, eine Physiotherapeutin, jemand vom Sanitätshaus und ein oder zwei andere Personen. Ich fand dieses Verhältnis seltsam. Man wurde mit Ergebnissen konfrontiert; so nach dem Motto: Friss oder stirb.“

6.2.3. Ergebnisse der semi-strukturierten Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden

Es wurden N = 6 Interviews mit Kinderärzt*innen, Physiotherapeut*innen (aus Institutionen) und einer Pflegedirektion eines häuslichen Pflegedienstes geführt. Im Durchschnitt betreuten die Gesundheitsdienstleistenden 1.83 SMA-Patient*innen in ihrer beruflichen Laufbahn (min = 1, max = 3, SD = 0.90). In Anbetracht der kleinen Fallzahl an semi-strukturierten Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden wurden die Ergebnisse dieser Befragung vor allem als unterstützende Information hinsichtlich der semi-strukturierten Interviews mit Eltern gewichtet und gaben einen Einblick in die Perspektive weiterer involvierter Akteur*innen im Versorgungsnetz von Patient*innen mit SMA. Dabei galten die gleichen Codes und Subcodes, wie im Rahmen der semi-strukturierten Interviews mit Eltern (Tabelle 5).

Gemäß der befragten Gesundheitsdienstleistenden bestand ihr Beitrag zum „Krankheits- und Koordinationsmanagement“ der Eltern zum einen in der Unterstützung dieser in akuten Entscheidungen, z.B. ob ein Infekt noch zu Hause bewältigt werden kann oder eine stationäre Aufnahme erfolgen muss. Zum anderen erfolgte eine kontinuierliche Begleitung der Eltern im Hinblick auf das generelle Management, z.B. durch eine Anleitung der Eltern in therapeutischen Anwendungen zu Hause, durch Unterstützung bei der Einschätzung der eigenen Fähigkeiten und Ressourcen, durch Hilfe bei der Identifikation von sinnvollen

Behandlungsoptionen bei Internetrecherche sowie durch Ermutigen der Eltern beim Aufbau eines konstanten Versorgungsnetzes.

„Meine Hauptaufgabe ist die Anleitung der Mutter. Noch vor der eigentlichen Behandlung am Kind ist es doch gerade bei Familie G. viel mehr die Unterstützung der Mutter, zureden: Was kann sie zu Hause tun? Wann ist es auch zu viel? Welche Hilfsmittel und so was alles. Und in zweiter Linie ist es dann eigentlich erst, am Kind sich um konkrete Kontrakturen zu kümmern oder Muskelaufbau zu probieren.“

Hinsichtlich der Codes „Rahmenbedingungen in der Versorgung“ und „Fachwissen und Fertigkeiten aufseiten der Fachkräfte“ stützten die Aussagen der Befragten die Ergebnisse aus den Interviews mit betroffenen Eltern. Die Befragten betonten fehlende (eigene) Ressourcen zu ganzheitlichen Betreuung des Kindes (z.B. Unterstützung bei einem Rehabilitationsantrag) sowie eine nicht immer ausreichende Routine in der Behandlung von SMA-Patient*innen und die eigene Bereitschaft zur Weiterbildung.

Einzelbeispiele für „bestehende Koordinationsmechanismen“ waren die konkrete Vermittlung von Kontakten im Versorgungsnetz und das Entwerfen individueller Lern- und Entwicklungspläne, die mindestens zweimal im Jahr mit allen beteiligten Therapeut*innen und den Eltern besprochen und aktualisiert wurden.

„Wahrgenommener Koordinationsbedarf“ äußerten die Befragten durch die Feststellung einer fehlenden Komponente, die für die Gesamtbehandlung medizinisch verantwortlich ist. Sie berichteten, ebenso wie die befragten Eltern, über viele einzelne Anlaufstellen deren Schnittstelle die Eltern sind. Dies führte unter Umständen zu Verantwortungsdiffusion im Versorgungsnetz. Eine besondere Verantwortung sahen die Befragten im Muskelzentrum. In diesem sollten möglichst alle SMA-spezifischen Probleme adressiert werden (z.B. orthopädische und radiologische Untersuchung), damit die Behandlung möglichst „in einer Hand bleibt“.

„Wenn die Patienten stationär sind, dass man dann auch gleich die weiteren Probleme - die ganzen orthopädischen Probleme z.B. - dass man das während dieser kostbaren Tage in der Klinik vor Ort klärt. Und man nicht hier vor Ort zum Radiologen schicken muss, zum Orthopäden schicken muss usw. - sondern dass das halt möglichst in einer Hand bleibt.“

Hinsichtlich des Informationsaustauschs untereinander (d.h. zwischen Fachkräften) beschrieben die befragten Gesundheitsdienstleistenden ein heterogenes Bild. Zwischen den wohnortnahen Versorgenden, insbesondere zwischen den lokalen Therapeut*innen, gab es oft regelmäßige Absprachen und teilweise eine gemeinsame Behandlungsplanung. Der Austausch mit dem Muskelzentrum und weiteren beteiligten (Universitäts-)Kliniken hingegen wurde unterschiedlich bewertet. Die Hälfte aller Befragten beschrieben einen mangelnden zeitnahen und effizienten Informationsaustausch. Nicht alle an der Versorgung beteiligten Akteur*innen erhielten (regelmäßig) Arztbriefe, häufig war man auf die Schilderungen der Eltern angewiesen. Im Hinblick darauf wurde zusätzlich die Notwendigkeit des Austausches von ausreichender Information beschrieben, um die Eltern hinsichtlich der nächsten therapeutischen Maßnahme beraten zu können.

„Einfacher wäre es, mir per Telefon mitzuteilen: Das und das Problem ist da. Wir lösen das so und so und Sie sind mit dieser Funktion dann Teil des Behandlungsplans. Beispielsweise wenn ich dann nur einen Brief bekomme und darauf steht, ich soll Blut abnehmen und irgendwo in ein Speziallabor schicken, dann ist es natürlich nicht so schön, als wenn man einen Anruf bekommen hat und gesagt bekommt: Das und das musst du machen aus dem und dem Grund. Da wird man häufig auch mit dem Problem dann auch allein gelassen und bekommt dann keine vernünftige Antwort oder muss sich schon sehr, sehr anstrengen, jemanden an die Strippe zu bekommen, der dann auch Kompetenz hat.“

„Wenn jetzt Kinder in der Spezialambulanz waren, dass man auf die Schilderungen der Eltern angewiesen ist, wie sie den Aufenthalt empfunden haben, wie sie die ganzen Erklärungen und das weitere Vorgehen interpretieren... sondern dass man direkt von den behandelnden Ärzten relativ schnell eine Rückmeldung bekommt, damit man die Eltern auch besser beraten kann, was tatsächlich als nächste Therapie vorgesehen ist oder wie bestimmte Zustände interpretiert werden.“

Die andere Hälfte der Befragten empfand den Austausch mit dem Muskelzentrum und weiteren beteiligten (Universitäts-)Kliniken als gut; in einem Fall gab es eine direkte Kooperation beim Ausfüllen eines Rehabilitationsantrages.

„Die Eltern wurden [im Muskelzentrum] beraten und die Mutter kam dann vom stationären Aufenthalt zurück und war nicht zufrieden; sie hätte keine richtigen Antworten bekommen usw. Das ließ sich dann aber alles, nachdem ich mit Herrn L. selbst telefoniert habe, wieder in die richtigen Bahnen leiten, sodass die Eltern da jetzt auch das Vorgehen, wie es in der Klinik besprochen war, gut akzeptieren konnten und damit zurechtkommen.“

Hinsichtlich des Codes der „Rollenverteilung in der Behandlungscoordination“ hoben die Befragten vor allem die „Rolle des/der Kinderarztes/Kinderärztin“, die „Rolle der lokalen Versorgenden“ sowie die „Rolle des Muskelzentrums“ hervor. Der/die Kinderärzt*in sollte die Familien beim Auf- und Ausbau des Versorgungsnetzes unterstützen, Rezepte/Überweisungen/Einweisungen (auf Empfehlung des Muskelzentrums) vornehmen sowie den allgemeinen Gesundheitszustand des Kindes überwachen. Das Muskelzentrum sollte medizinisch für die Behandlung des/der Patient*innen verantwortlich sein, Ansprechpartner für die übrigen Akteur*innen im Versorgungsnetz sein, die Therapeut*innen und Ärzt*innen durch Therapieempfehlungen unterstützen sowie regelmäßige Austauschgespräche mit allen Akteur*innen des Versorgungsnetzes initiieren. Die „Rolle der lokalen Versorgenden“ bestand gemäß der Befragten v.a. aus der Entlastung der Eltern durch Unterstützung im pflegerischen und medizinischen Bereich, dem Auffangen der Eltern bei Fragen oder Unsicherheiten sowie der Bereitschaft zur Diskussion neuer Behandlungsoptionen.

6.2.4. Ergebnisse der Betreuungstagebücher

Tabelle 6 zeigt die durch N = 15 Eltern mit Hilfe der Betreuungstagebücher über einen vierwöchigen Zeitraum dokumentierten Koordinationstätigkeiten. Diese sind charakterisiert durch die durchschnittliche Zeit, die die jeweiligen Aktivitäten in Anspruch genommen haben sowie durch die durchschnittliche Schulnote, die die Zufriedenheit mit dem Ergebnis der jeweiligen Aktivität widerspiegelt. Dabei sind einzelne Tätigkeiten, wenn möglich, einem spezifischen Gesundheitsdienstleistenden zugeordnet worden, um sowohl die durchschnittliche Dauer, als auch die durchschnittliche Zufriedenheit zu referenzieren. Innerhalb der jeweiligen übergeordneten Koordinationstätigkeitskategorie sind die dem Gesundheitsdienstleistenden zugeordneten Aktivitäten nach ihrer durchschnittlichen Dauer geordnet (von der Aktivität, die am meisten Zeit in Anspruch nahm bis zur Aktivität, die am wenigsten Dauer in Anspruch nahm).

Tabelle 6

Über einen vierwöchigen Zeitraum durch N = 15 Eltern dokumentierte
Koordinationstätigkeiten

Koordinationstätigkeit	Gesundheitsdienstleistende*r	Häufigkeit der Nennungen	Mittelwert Dauer [Std.] (SD)	Mittelwert Schulnote (SD)	
Termin	Klinik	4	13 (13,89)	2,75 (1,26)	
	Patientenorganisation	3	5,17 (7,65)	1,0 (0)	
	Hilfsmittelversorger	6	2,68 (2,05)	1,96 (0,49)	
	Kindergarten	2	1,75 (0,35)	2,6 (0,88)	
	Kinderärzt*in	1	1 (-)	2,0 (-)	
	Behörden	1	1 (-)	4,0 (-)	
Organisation Kinderbetreuung		10	2,82 (1,66)	2,0 (1,25)	
Studien		3	2,17 (2,46)	1,3 (0,58)	
Fahrt	Klinik	3	2 (0)	2,0 (0)	
	Hilfsmittelversorger	3	1,67 (0,58)	2,0 (1)	
	Fachärzt*in	2	1,5 (0,71)	2,0 (0)	
	SPZ/Frühförderzentrum	2	1,5 (0,71)	3,0 (0)	
	Lokale Therapeuten	39	1,24 (0,52)	1,32 (0,73)	
	Kinderärzt*in	6	1,06 (0,40)	2,0 (1,1)	
Recherche	Hilfsmittelversorger	3	1 (0)	2,7 (0,58)	
	Lokale Therapeut*innen	3	0,81 (0,17)	2,0 (1,0)	
Therapieorganisation/-durchführung	Therapiedurchführung zu Hause	8	0,97 (0,09)	1,9 (0,03)	
	Lokale Therapeut*innen	10	0,9 (0,39)	2,2 (0,47)	
Rezeptorganisation	Kinderärzt*in	13	0,66 (0,46)	2,5 (1,13)	
	Klinik	2	0,42 (0,12)	1,55 (0,71)	
Organisation Unterstützung	Häusl. Pflegedienst	8	0,77 (0,67)	12,0 (1,07)	
	Hilfsmittelversorger	20	0,66 (1,28)	1,4 (0,50)	
	Kinderärzt*in	1	0,1 (-)	1,0 (-)	
Klärung Rechtlicher Fragen	Krankenkasse	3	0,4 (0,13)	2,3 (0,58)	
Nachfrage/Kontakt-aufnahme	Behörden	1	1 (-)	3,0 (-)	
	Orthopädie	5	0,91 (1,03)	2,8 (0,84)	
	DRV	7	0,63 (0,71)	2,29 (1,38)	
	Krankenkasse	9	0,39 (0,36)	3,39 (1,41)	
	Kinderärzt*in	4	0,38 (0,31)	2,25 (1,5)	
	Patientenorganisation	6	0,37 (0,53)	2,0 (0)	
	Klinik	5	0,35 (0,37)	2,1 (1,14)	
	Häusl. Pflegedienst	3	0,33 (0,22)	1,67 (1,15)	
	Palliativteam	1	0,3 (-)	2,0 (-)	
	Kindergarten	2	0,21 (0,06)	2,5 (0,71)	
	SPZ/Frühförderzentrum	3	0,19 (0,13)	3,0 (2,0)	
	Hilfsmittelversorger	18	0,19 (0,21)	2,6 (1,18)	
	Lokale Therapeut*innen	2	0,17 (0,08)	1,0 (0)	
	Terminkoordination	Gutachter*innen	1	0,33 (-)	6,0 (-)
		Häusl. Pflegedienst	6	0,23 (0,23)	2,5 (1,64)
DRV		5	0,22 (0,05)	5,0 (0)	
Hilfsmittelversorger		7	0,18 (0,15)	2,43 (1,27)	
Lokale Therapeut*innen		4	0,17 (0)	2,25 (0,5)	
Kinderärzt*in		4	0,17 (0)	2,25 (0,5)	

Grauschattierung von Koordinationstätigkeiten wird in Abschnitt 6.3.5.1. im Rahmen der gesundheitsökonomischen Evaluation erklärt.

Die Angaben in den Betreuungstagebüchern geben Auskunft darüber, welche Koordinationstätigkeiten die Eltern im Rahmen der Versorgung ihres Kindes verrichten, wie viel Zeit sie dafür aufwenden sowie über die Höhe der informellen Kosten, die im Rahmen dieser Tätigkeiten aufgebracht werden müssen.

Die Analyse des Zeitaufwands sowie die daran referenzierten informellen Kosten sind in Tabelle 7 dargestellt. Zum Zeitpunkt der Erhebung waren von N = 15 Personen n = 4 angestellt in Vollzeit, n = 7 angestellt in Teilzeit und n = 4 Personen nicht erwerbstätig.

Tabelle 7

Aufgewandte Zeit (Std.) und informelle Kosten (€) im Rahmen der elterlich geleisteten Koordinationstätigkeiten für den Dokumentationszeitraum von 4 Wochen sowie hochgerechnet auf 12 Monate

	Zeitraum = 1 Monat		Zeitraum = 1 Jahr	
	Zeit (Std.)	Kosten (€)	Zeit (Std.)	Kosten (€)
M	38,60	779,87	463,17	9.358,44
min	3,77	56,55	45,20	678,60
max	259,12	5.293,82	3.109,40	63.525,86
SD	62,80	1.283,94	753,62	15.407,32

Bei Ermittlung des Verhältnisses zwischen durchschnittlicher Gesamtkosten und Zeitaufwand, ergeben sich 20,20 € informelle Kosten pro Stunde.

Sowohl die Zeitangaben, als auch die informellen Kosten variieren jedoch stark zwischen den einzelnen Betreuungstagebüchern. Dies lässt vermuten, dass die befragten Eltern unterschiedlich viel Zeit und Kosten hinsichtlich der individuellen Versorgungskoordination ihrer Kinder aufbrachten, was zum einen auf die Schwere der Erkrankung zurückzuführen, zum anderen jedoch auch abhängig von der Eigeninitiative der Eltern sowie potentieller, bereits existierender Unterstützung im Rahmen der Koordination sein könnte. Die in den Betreuungstagebüchern gemachten Angaben dienen im Rahmen des SMA-C+-Projekts vor allem der Konzeption eines SMA-spezifischen Case Managements, weshalb die Interpretation der Ergebnisse vor allem potentielle Unterstützungs- und Entlastungsbereiche fokussiert.

„Termine“ und „Fahrten“ sind hinsichtlich der Tätigkeitsdauer die größten Kategorien. Da SMA eine chronische Erkrankung ist und viele Gesundheitsdienstleistende an der Versorgung der Patient*innen beteiligt sind, ist es naheliegend, dass die Familien einige (reguläre) Versorgungstermine wahrnehmen. Zusätzlich gehört SMA zu den seltenen Erkrankungen, sodass die Versorgung der Patient*innen oft nicht ausschließlich wohnortnah gewährleistet werden kann. Das Muskelzentrum sowie Therapeuten mit Fachwissen liegen häufig in weiterer Entfernung und bedürfen längerer (Auto-)Fahrten. Allerdings könnte eine Verbesserung in diesen beiden Kategorien höchstens durch eine dichtere Versorgungsabdeckung adressiert werden, was außerhalb des Leistungsrahmens dieses Projekts lag. Die Betreuungstagebücher lieferten daher vor allem eine Einschätzung bei welchen Koordinationstätigkeiten die betroffenen Eltern durch ein CM entlastet werden konnten und lieferten wertvolle Informationen hinsichtlich der in diesem Projekt entwickelten Versorgungsmodell. Die Eltern gaben an, viel Zeit für „Patientenorganisationen“ und die Teilnahme an „Studien“ aufzuwenden. Darunter fielen u.a. Aktivitäten, wie die Teilnahme an durch Patientenorganisationen organisierten Informationsveranstaltungen. Durch eine Teilnahme an Studien erhofften sich die Eltern eine langfristige Verbesserung der Versorgungsqualität und Zugang zu neuen Behandlungsoptionen. Im Zusammenhang mit der

Kategorie „Recherche“ lässt vermuten, dass die Teilnehmenden einen hohen Informationsbedarf haben, den sie vor allem durch Eigeninitiative zu decken versuchen. Gleichzeitig gaben viele Eltern an, sich Information aus zuverlässigeren Quellen zu wünschen. Eine CM-Intervention sollte daher den Informationsfluss verbessern und Informationen aus verlässlichen Quellen bereitstellen. Im Hinblick auf die Zufriedenheit mit den Ergebnissen der Koordinationsaktivitäten lässt sich feststellen, dass vor allem „Terminkoordination“ sowie „Nachfrage/Kontaktaufnahme“ (v.a. in Bezug auf Behörden, DRV oder die Krankenkasse) die schlechtesten Bewertungen beinhalten. Entlastung durch eine CM-Intervention könnte in diesen Bereichen durch eine direkte Kommunikation zwischen Case Manager*in und Behörden/Krankenkasse erfolgen. Eine befriedigende Schulnote im Hinblick auf das SPZ/Frühförderzentrum über alle Bereiche hinweg lässt den Wunsch eines/einer Ansprechpartners/Ansprechpartnerin aufseiten der Eltern vermuten, den sie diesen Institutionen zuschreiben würden, sich dort gemäß der Freitextkommentare jedoch nicht immer aufgefangen fühlen. Auffällig war zudem, dass bei nur ca. 16% der Tätigkeiten angegeben wurde, man könne sie ohne weitere Probleme delegieren. Oft wurde eine Delegation an Verwandte/Partner*in oder nur unter bestimmten Bedingungen („mit genauer Absprache vorher“; „wenn das Fachwissen unter den Fachkräften höher wäre“) angegeben. Dies lässt darauf schließen, dass die Eltern sehr routiniert sind und ihre Funktion einen zentralen Stellenwert innerhalb der Versorgung ihrer Kinder einnimmt. Es ist daher unerlässlich, dass die CM-Intervention diese Einschätzung berücksichtigt und ein auf die Familie abgestimmtes, individuelles Versorgungspaket anbietet. In den Verbesserungsvorschlägen wurden häufig folgende Begriffe genannt: bessere Kommunikation (der Akteur*innen untereinander), effizientere Rückmeldungen, bessere Erreichbarkeit, bessere Organisation sowie mehr Information und Unterstützung (z.B. bei Anträgen oder durch Hausbesuche der Fachkräfte). Eine CM-Intervention sollte daher den Austausch im Versorgungsnetz verbessern sowie Aufgaben in der Versorgungsorganisation übernehmen und die Eltern auf ihrem Weg durch die Versorgung begleiten und unterstützen.

6.2.5. Abweichungen gegenüber der ursprünglichen Planung

Gemäß dem Projektantrag wurde eine Stichprobengröße von $N = 20$ in die Behandlung der teilnehmenden SMA-Patient*innen involvierten Gesundheitsdienstleistenden angestrebt. Erreicht wurde lediglich eine Stichprobengröße von $N = 6$. Die Rekrutierung erfolgte über die Familien der Interventionsgruppe inkl. Nennung eines geeigneten Behandelnden sowie der Erklärung zur Entbindung der Schweigepflicht sowie über persönliche Ansprache von Gesundheitsdienstleistenden über den Projektleiter, sofern Kontakt zum Muskelzentrum bestand. Es gestaltete sich als schwierig geeignete Teilnehmende zu finden, da viele angesprochene lokale Versorgende ihre eigene Rolle im Versorgungsnetz der Patient*innen als nicht „involviert“ genug ansahen und befürchteten, nicht ausreichend Informationen zu der Studie beitragen zu können. Des Weiteren änderten sich Aspekte der Versorgung von SMA-Patient*innen zum Zeitpunkt der Rekrutierung gravierend (z.B. Neuzulassungen von Medikamenten, COVID-19), sodass die betroffenen Familien, über die potentielle Gesundheitsdienstleistende rekrutiert werden sollten, sehr eingebunden waren und auch nach mehrmaliger telefonischer Erinnerung nicht über die Zeit verfügten geeignete Teilnehmende zu benennen und von der Schweigepflicht zu befreien. Aus diesem Grund wurde der Beitrag, den die semi-strukturierten Interviews zum Erkenntnisgewinn aus Phase 2 leisten sollten, adjustiert. Durch die umfangreichen Interviews mit den teilnehmenden Eltern gab es eine Sättigung inhaltlicher Themen für das CM, da die Intervention stärker an den Familienbedürfnissen ausgerichtet wurde. Neben der primären Einschätzung der befragten Eltern dienten die Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden daher vor allem zur Gewinnung unterstützender Informationen hinsichtlich der Entwicklung des Codesystems und der CM-Intervention.

Gemäß dem Projektantrag sollte zudem eine Stichprobengröße von N = 20-25 Eltern rekrutiert werden, die über vier Wochen hinweg den tabellarischen Dokumentationsbogen des Betreuungstagebuchs ausfüllten. Auch in diesem Fall ist anzumerken, dass die Versorgung von SMA-Patient*innen zum Erhebungszeitpunkt dynamisch war und ein hohes Maß an Anpassungsfähigkeit der teilnehmenden Eltern einforderte. Des Weiteren ist eine ausführliche Dokumentation aller Koordinationstätigkeiten über vier Wochen ein Mehraufwand, der zusätzlich zum Versorgungsmanagement und zur häuslichen Pflege durch die betroffenen Familien geleistet werden musste. Auch nach mehrmaliger telefonischer Erinnerung konnten wir lediglich N = 15 Teilnehmende für das Ausfüllen der Betreuungstagebücher gewinnen. Durch eine multimodale Herangehensweise war es jedoch möglich die Ergebnisse aus den semi-strukturierten Interviews und den Betreuungstagebüchern zu synthetisieren und wichtige Erkenntnisse für die Entwicklung der SMA-spezifischen CM-Intervention zu gewinnen, welches das primäre Ziel von Phase 2 war.

Gemäß dem Projektantrag sollte zudem eine qualitative Inhaltsanalyse der semi-strukturierten Interviews nach Mayring erfolgen (Mayring, 2022). Nach Ergebnisse interner Diskussionen innerhalb der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung sowie nach Rücksprache mit der Projektleitung entschieden wir uns für die Auswertungsmethode der qualitativen Inhaltsanalyse nach Kuckartz (Kuckartz, 2018). Diese Auswertungsmethode orientiert sich eher am Material, ist offener in ihrer Ausrichtung und schien für die große Menge an Datenmaterial der geführten Interviews besser geeignet.

6.3. Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements

6.3.1. Rücklauf der Fragebögen und Stichprobencharakteristika

Tabelle 8

Rücklauf der Fragebögen zu den drei Messzeitpunkten T0-T1

Gruppe	T0	T1	T2
Interventionsgruppe (IG)	21	17	20
Kontrollgruppe (KG)	11	11	11

T0 = Zeitpunkt der Rekrutierung, T1 = 9 Monate, T2 = 15 Monate. Eine Fluktuation im Rücklauf innerhalb der Interventionsgruppe kam durch kurzzeitig mangelnde zeitliche Ressourcen der Teilnehmenden zustande.

Tabelle 9

*Deskriptive Charakteristika der befragten Eltern und SMA-Patient*innen zu T0, getrennt nach Gruppen*

Variable	IG (%) (n = 21)	KG (%) (n = 11)
Geschlecht		
Weiblich	17 (81.0)	2 (18.2)
Männlich	4 (19.0)	9 (81.8)
Alter zum Zeitpunkt der Erhebung M (SD)	34.6 (5.2)	38.4 (4.7)
Höchster Bildungsabschluss		
Grund-/Haupt-/Realschule (Mittlere Reife)	5 (23.8)	-
Abitur (Allgemeine Hochschulreife)	3 (14.3)	1 (9.1)
Abgeschlossene Ausbildung	7 (33.3)	2 (18.2)
Hochschule/Universität (Bachelor, Master, Doktor)	5 (23.9)	4 (36.4)
Anderer	1 (4.8)	4 (36.4)

Familienstand

Akronym: SMA-C+

Förderkennzeichen: 01VSF18005

Ledig	3 (14.3)	-
Verheiratet	15 (71.4)	10 (90.9)
In einer festen Partnerschaft lebend	2 (9.5)	1 (9.1)
Geschieden, getrennt lebend	1 (4.8)	-
Erwerbsstatus		
Angestellte/r, Vollzeit	4 (19.0)	2 (18.2)
Angestellte/r, Teilzeit	9 (42.8)	4 (36.4)
Beamte/r	-	1 (9.1)
selbstständig	1 (4.8)	-
Nicht erwerbstätig/erwerbsfähig	4 (19.0)	3 (27.3)
Anderer	2 (9.5)	-
Inanspruchnahme medizinischer und therapeutischer Leistungen	4 (19.0)	4 (19.0)
Arbeitsausfall zur Gewährleistung der Versorgung des Kindes	4 (19.0)	3 (27.3)
Geschlecht Kind		
Weiblich	9 (42.9)	6 (54.5)
Männlich	12 (57.1)	5 (45.5)
Kindesalter zum Zeitpunkt der Erhebung		
1-3 Jahre	7 (33.3)	3 (27.3)
3-12 Jahre	13 (61.9)	7 (63.6)
12-18 Jahre	1 (4.8)	1 (9.1)
Durchschnittliche Zeit zwischen Diagnosestellung und T0-Interview in Jahren (SD)	3.79 (2.22)	4.82 (3.44)
Anzahl der in die Behandlung des Kindes involvierten Gesundheitsdienstleistenden		
2-5	7 (33.3)	1 (9.1)
6-10	9 (42.9)	7 (63.6)
11-15	1 (4.8)	2 (18.2)
>15	2 (9.5)	1 (9.1)
Krankenversicherung		
Gesetzlich	16 (76.2)	10 (90.9)
Gesetzlich mit Zusatzversicherung	4 (19.0)	-
Privat	-	1 (9.1)
Ungeplante medizinische und therapeutische Versorgung in den letzten drei Monaten (Kind)	7 (33.3)	5 (45.5)
Hilfsmittelversorgung (Kind)		
Atemunterstützung	9 (42.9)	5 (45.5)
Hustenassistent	12 (57.1)	7 (63.6)
Ernährungsunterstützung	6 (28.6)	3 (27.3)
Zu Hause überwiegend gesprochene Sprache		
Deutsch	13 (61.6)	10 (90.9)
Andere	7 (38.4)	1 (9.1)
<hr/>		
Häufigkeit der CM-Nutzung (T0-T2)		
Anzahl Kontakte M (SD)	13.9 (2.98)	-
CM-Betreuungszeitraum in Monaten M (SD)	19.37 (2.61)	-

Nicht alle Teilnehmenden beantworteten alle Fragen. Alle Unterschiede zwischen den Gruppen waren nicht signifikant. Angaben zur CM-Nutzung sind von T0-T2 und gelten nur für die IG.

6.3.2. Ergebnisevaluation – Messung der primären Endpunkte

Wie bereits in Abschnitt 5.5.1. zur Fallzahlberechnung angegeben, war ein Wirksamkeitsnachweis auf der Basis statistischer Signifikanzprüfungen kein primäres Ziel der Studie. Der Vollständigkeit halber werden Signifikanznachweise dennoch berichtet.

1. Qualität der Behandlungsintegration aus Sicht der Eltern

Eine Übersicht der Skalenwerte für alle Messzeitpunkte, getrennt nach Gruppen, ist in Tabelle 10 dargestellt. Eine grafische Darstellung der Mittelwerte für alle Messzeitpunkte, getrennt nach Gruppen, ist in Abbildung 6 und 7 dargestellt. Die LMM ergaben keine signifikanten Ergebnisse für die PICS-D-Skalen „Teamqualität & -kommunikation“ und „Auswirkungen auf die Familie“. Die relevanten Parameter (unstandardisierte Regressionskoeffizienten inkl. Standardfehlern) sind in Tabelle 14 (s. Ende Kapitel 6.3.3.) dargestellt. Für die PICS-D-Skala „Teamqualität & -kommunikation“ wurde eine mittlere ES nach den üblichen Konventionen ($R^2_m \geq 0.06$) erreicht.

Tabelle 10

Skalenwerte der PICS-D Skalen getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten

	Teamqualität & -kommunikation						Auswirkungen auf die Familie					
	IG			KG			IG			KG		
	T0	T1	T2	T0	T1	T2	T0	T1	T2	T0	T1	T2
n	20	17	19	11	11	11	20	17	19	11	11	11
M	4.52	4.26	4.34	3.88	4.16	3.71	2.94	2.51	2.57	2.45	2.02	2.25
(SD)	(1.02)	(0.98)	(0.91)	(1.16)	(1.06)	(1.31)	(1.01)	(0.96)	(1.17)	(1.65)	(1.32)	(1.39)
min	2.14	1.86	2.00	2.43	3.00	2.43	1.50	1.25	1.00	1.00	1.00	1.25
max	5.86	5.29	6.00	6.00	6.00	6.00	4.75	4.50	5.50	6.00	5.50	5.25

Abbildung 6

Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die PICS-D-Skala „Teamqualität & -kommunikation“; Skalenbereich 1-6; höhere Werte bedeuten eine bessere wahrgenommene Qualität der Behandlungsintegration und der Kommunikation im Versorgungsnetz

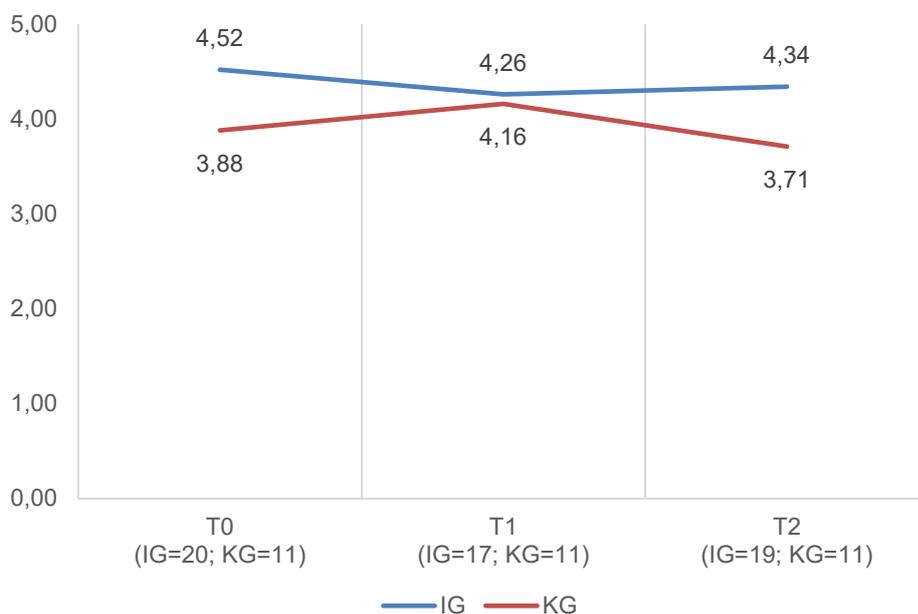
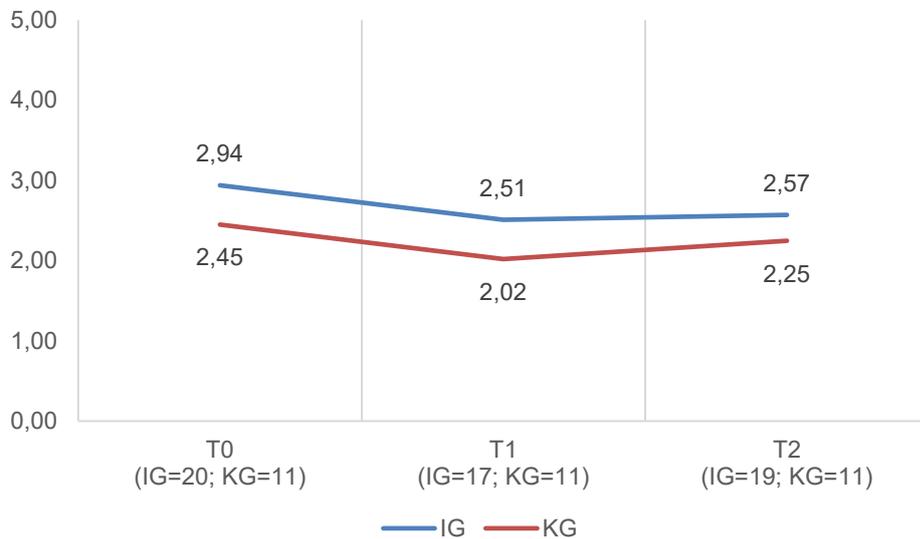


Abbildung 7

Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die PICS-D-Skala „Auswirkungen auf die Familie“; Skalenbereich 1-6; höhere Werte bedeuten eine elterlich besser wahrgenommene Kommunikation potentieller Krankheitsauswirkungen auf die Familie durch das Versorgungsnetz



2. GLQ der Eltern

Eine Übersicht der Skalenwerte für alle Messzeitpunkte, getrennt nach Gruppen, sind in Tabelle 11 und 12 dargestellt. Eine grafische Darstellung der Mittelwerte für alle Messzeitpunkte, getrennt nach Gruppen, ist in den Abbildungen 8-10 dargestellt. Die LMM ergaben keine signifikanten Ergebnisse für die FaBel- und SF-12-Skalen. Relevante Parameter (unstandardisierte Regressionskoeffizienten inkl. Standardfehlern) sind in Tabelle 14 (s. Ende Kapitel 6.3.3.) dargestellt. Die angestrebten Effektgrößen wurden für alle Skalen nicht erreicht.

Tabelle 11

FaBel Gesamtwert getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten

	FaBel Gesamtwert					
	IG			KG		
	T0	T1	T2	T0	T1	T2
n	21	17	20	11	11	11
M (SD)	8.51 (1.96)	8.62 (1.83)	8.27 (2.87)	9.33 (2.34)	9.61 (2.18)	9.55 (2.23)
min	3.42	5.65	1.75	5.70	5.75	5.58
max	11.62	11.53	11.93	12.83	12.67	12.60

Abbildung 8

Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für den FaBel Gesamtwert; Skalenbereich 4-16, höhere Werte bedeuten höhere Belastung

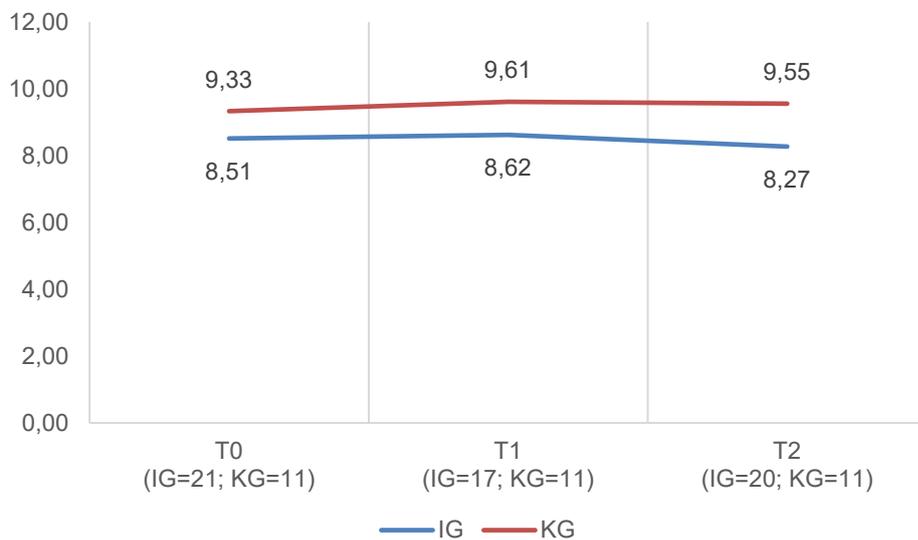


Tabelle 12

Skalenwerte der SF-12 Skalen getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten

	Körperliche Gesundheit						Psychische Gesundheit					
	IG			KG			IG			KG		
	T0	T1	T2	T0	T1	T2	T0	T1	T2	T0	T1	T2
n	21	17	20	11	11	11	21	17	20	11	11	11
M (SD)	46.09 (11.04)	43.01 (11.87)	42.91 (12.11)	41.59 (13.58)	39.43 (12.51)	40.54 (11.06)	39.64 (11.35)	40.43 (12.84)	38.69 (12.91)	36.40 (14.98)	36.88 (15.07)	30.96 (14.00)
min	18.80	18.79	18.79	16.09	21.37	23.80	22.05	18.94	10.09	15.83	15.39	15.39
max	59.08	56.43	59.08	56.37	56.37	53.67	53.83	52.07	54.32	56.52	56.52	54.32

Abbildung 9

Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die SF-12-Skala „Körperliche Gesundheit“; Skalenbereich 0-100; höhere Werte bedeuten eine bessere körperliche Gesundheit

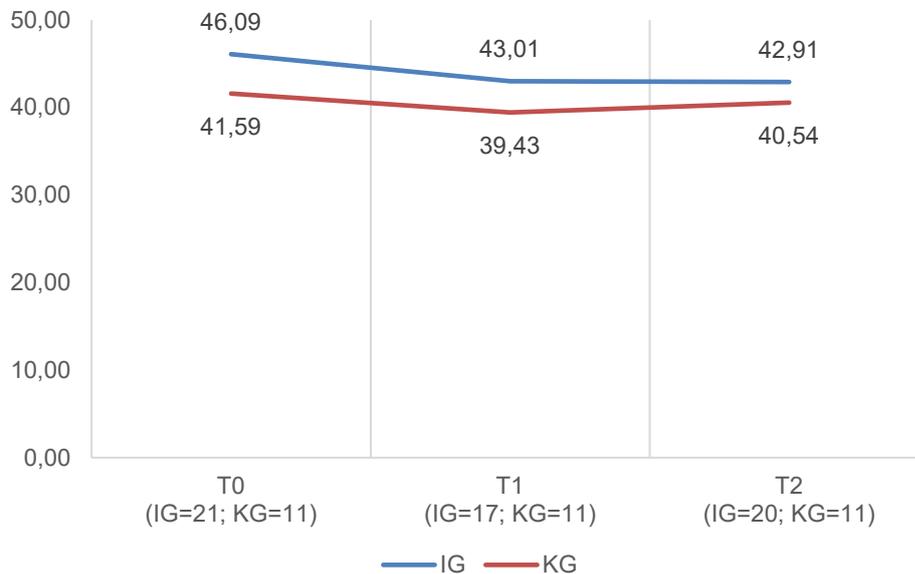
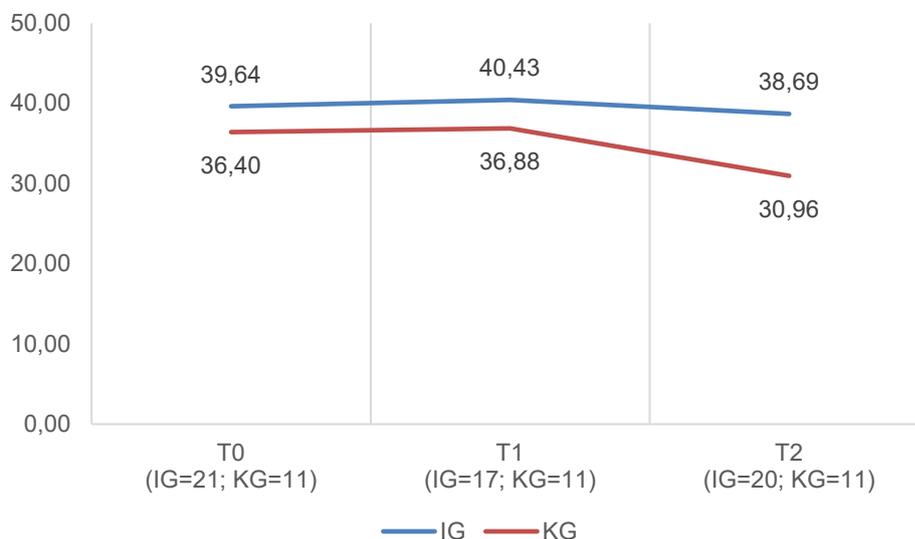


Abbildung 10

Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für die SF-12-Skala „Psychische Gesundheit“; Skalenbereich 0-100; höhere Werte bedeuten eine bessere psychische Leistungsfähigkeit



6.3.3. Ergebnisevaluation – Messung des sekundären Endpunkts

Wie bereits in Abschnitt 5.5.1. zur Fallzahlberechnung angegeben, war ein Wirksamkeitsnachweis auf der Basis statistischer Signifikanzprüfungen kein primäres Ziel der Studie. Der Vollständigkeit halber werden Signifikanznachweise dennoch berichtet.

1. GLQ der Kinder

Eine Übersicht der Skalenwerte für alle Messzeitpunkte, getrennt nach Gruppen, ist in Tabelle 13 dargestellt. Eine grafische Darstellung der Mittelwerte für alle Messzeitpunkte, getrennt

nach Gruppen, ist in Abbildung 11 dargestellt. Die LMM ergaben keine signifikanten Ergebnisse für die PedsQL-Skala. Relevante Parameter (unstandardisierte Regressionskoeffizienten inkl. Standardfehlern) sind in Tabelle 14 (s. Ende Kapitel 6.3.3.) zu finden. Die angestrebte Effektgröße wurde nicht erreicht.

Tabelle 13

PedsQL Gesamtwert getrennt nach Gruppen und Messzeitpunkten

	PedsQL Gesamtwert					
	IG			KG		
	T0	T1	T2	T0	T1	T2
n	19	15	19	10	11	11
M (SD)	45.01 (12.88)	45.47 (14.49)	44.08 (15.69)	42.23 (14.03)	43.02 (8.50)	41.57 (23.33)
min	25.00	25.00	25.00	27.08	30.00	23.33
max	64.58	68.75	75.00	65.38	56.67	60.00

Abbildung 11

Darstellung der Mittelwerte in IG und KG für den PedsQL Gesamtwert; Skalenbereich 0-100; höhere Werte bedeuten bessere GLQ

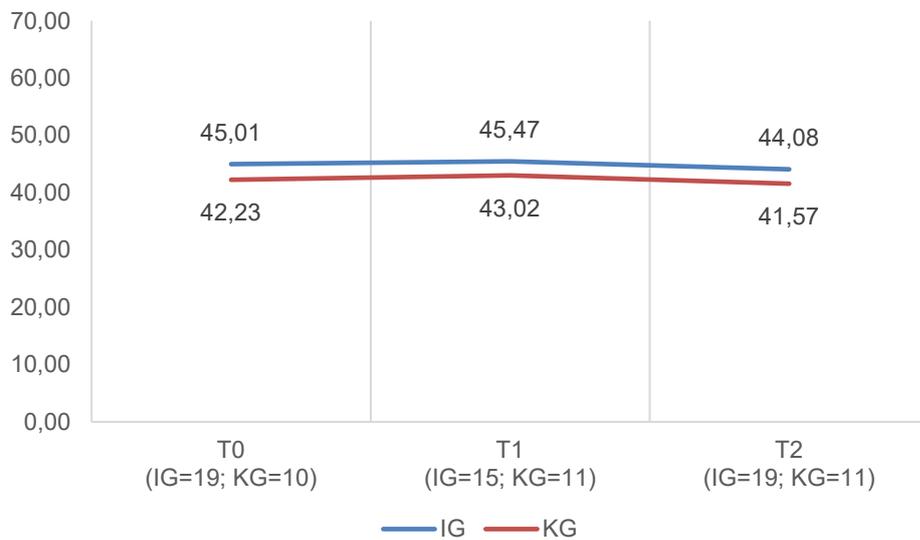


Tabelle 14

LMM Ergebnisse für primäre und sekundäre quantitative Endpunkte

	Primäre Endpunkte					Sekundärer Endpunkt
	Qualität der Behandlungsintegration			GLQ Eltern		GLQ Kinder
	PICSD-TQC	PICSD-FI	FaBel-T	SF12-K	SF12-P	PedsQL-T
Fixed effects						
Intercept	4.52 (0.24)	2.94 (0.27)	8.50 (0.51)	46.09 (2.58)	39.64 (2.86)	44.78 (3.03)
Group (KG)	-0.64 (0.40)	-0.48 (0.45)	0.82 (0.86)	-4.50 (4.40)	-3.24 (4.87)	-1.55 (5.12)
Time (T1)	-0.36 (0.20)	-0.44 (0.19)	0.02 (0.36)	-3.57 (1.86)	0.14 (2.29)	0.34 (2.53)
Time (T2)	-0.15 (0.20)	-0.36 (0.18)	-0.33 (0.33)	-2.84 (1.75)	-0.79 (2.16)	0.12 (2.36)
KG*T1	0.63 (0.33)	0.01 (0.31)	0.26 (0.58)	1.41 (3.01)	0.33 (3.71)	-0.06 (4.05)
KG*T2	-0.02 (0.33)	0.16 (0.31)	0.55 (0.56)	1.80 (2.95)	-4.65 (3.64)	-1.29 (3.94)
Random effects						
Intercept	0.77	1.13	4.24	108.32	124.3	128.62
Residual	0.37	0.33	1.13	30.98	47.2	51.23
R ² m	0.06	0.05	0.05	0.03	0.04	0.01

PICSD-TQC = PICS-D Skala „Teamqualität & -kommunikation“; PICSD-FI = PICS-D Skala „Auswirkungen auf die Familie“; FaBel-T = FaBel Gesamtwert; SF12-K = SF-12 Skala „Körperliche Gesundheit“; SF12-P = SF-12 Skala „Psychische Gesundheit“. Unstandardisierte Regressionskoeffizienten inkl. Standardfehlern in Klammern.

6.3.4. Prozessevaluation der CM-Intervention

Die folgenden Hauptcodes und Subcodes (Tabelle 15) gingen als Ergebnis der semi-strukturierten Interviews mit den an Phase 3 teilnehmenden N = 33 Eltern (IG = 21; KG= 11) hervor. Zusätzlich zu den prozessevaluierenden Codes für die Bewertung der CM-Intervention durch die Eltern wurde der Code „(Veränderung der) Behandlungsintegration“ gewählt, der die Qualität der Behandlungsintegration aus Sicht der Eltern beider Gruppen über die Messzeitpunkte hinweg qualitativ erfasst. Die beiden Subcodes umfassen Kernaspekte, auf die die CM-Intervention abzielte (CM als potenzielle Informationsquelle; Case Managerinnen als kontinuierliche Ansprechpartnerinnen im Versorgungsnetz). Anders, als in Phase 2 wurde beim Code „Behandlungsintegration“ ebenso der Hauptcode in den Transkripten vergeben. Die Subcodes sind thematische Unterbereiche, die jedoch eigenständig codiert wurden, sodass eine Vergleichbarkeit über die Messzeitpunkte hinweg bestand. Die ungeplante medizinische und therapeutische Versorgung des Kindes und der elterliche Arbeitsausfall zur Gewährleistung der Versorgung des Kindes zu T0 und getrennt nach Gruppen sind in Tabelle 9 dargestellt.

Tabelle 15

Finales Codesystem der semi-strukturierten Interviews in Phase 3

Hauptcodes	Subcodes
Behandlungsintegration zu T0	Informationen zu SMA
	Versorgungsnetz
Prozessevaluation der CM-Intervention (nur IG)	CM-Themen
	Kontakt mit der Case Managerin
	Gesamtbeurteilung des CM
	Gewünschte CM-Elemente
Veränderungen in der Behandlungsintegration (T1/T2)	Veränderungen in Informationen zu SMA
	Veränderungen im Versorgungsnetz

Behandlungsintegration zu T0

Mit diesem Code wurde der Status quo der Behandlungsintegration zum Zeitpunkt T0 erfasst. Zu diesem Zeitpunkt hatte die CM-Intervention in der IG gerade erst begonnen, so dass diese (Sub-)Codes einen Überblick über die Versorgungssituation von Kindern mit SMA aus Sicht der Eltern geben konnten. Daher gelten die folgenden Aspekte für beide Gruppen gleichermaßen.

Die Eltern berichteten von einem hohen Koordinationsaufwand. Dazu gehörten das Vereinbaren von Versorgungsterminen, das Ausprobieren neuer Behandlungsmöglichkeiten, das Einholen von (Zweit-)Meinungen zu neuen Behandlungsmöglichkeiten und das Einbringen dieser Möglichkeiten in das Versorgungsnetz des Kindes zur gemeinsamen Diskussion.

„Wir sind also sehr gut versorgt und L. bekommt eine sehr gute Therapie, aber ich denke, wenn wir nicht so viel proaktiv koordinieren würden, wäre es wahrscheinlich nur ein Bruchteil davon.“

„Es war einfach sehr, sehr zeitaufwändig für uns, mehrere Krankenhäuser aufzusuchen und deren Meinungen einzuholen. Ich glaube, wir haben jetzt vier Meinungen.“

(a) Subcode: Informationen zu SMA

Die Eltern berichteten, dass sie sich informierten aus eigener Initiative über SMA informierten (z. B. im Austausch mit betroffenen Eltern, mit Hilfe von Patientenorganisationen und über soziale Medien). Neue Versorgungsmöglichkeiten würden in der Regel zuerst mit anderen betroffenen Eltern und erst danach mit dem Fachpersonal besprochen.

„Ich frage zuerst in der [WhatsApp-]Gruppe selbst nach den Details. Und dann wende ich mich eigentlich an meine Kontaktperson im Krankenhaus.“

(b) Subcode: Versorgungsnetz

Die Eltern berichteten von Schwierigkeiten beim Aufbau eines Versorgungsnetzes sowie von mangelnder Kontinuität in der Versorgung ihrer Kinder. Zudem gäbe es selten eine ausreichende Vernetzung in bestehenden Versorgungsnetzen und ein Defizit an Kommunikation zwischen den Akteur*innen. Die Eltern beschrieben, dass es oft ihre eigene Aufgabe sei, für einen guten Austausch innerhalb des Versorgungsnetzes zu sorgen.

„Wir haben keinen richtigen Ansprechpartner im Krankenhaus. Wir hatten überlegt, auf ein neues Medikament umzusteigen. Wir hätten gerne mit einem Arzt darüber gesprochen. Aber wen sollten wir fragen? Keiner kennt unser Kind – und das nach über einem Jahr.“

„Jeder macht seine eigene Arbeit, aber Hand in Hand geht nicht. Seit der Diagnose sind wir also an der Reihe, irgendwie ein Netzwerk aufzubauen - aber haben keine Chance.“

„Die Krankenhäuser vernetzen sich untereinander nicht, reden nicht miteinander. Dann werden die Eltern fünfmal das Gleiche gefragt, zu sehr belastenden Themen.“

Nur in seltenen Fällen gäbe es eine zentrale Koordinationsstelle im Versorgungsnetz. Häufig gäbe es individuelle, informelle Lösungen, die von der Qualität des Versorgungsnetzes und der Initiative der Person abhingen, die die Koordinationsrolle (freiwillig) übernommen habe (z. B. Kinderarzt/Kinderärztin, SPZ-Leiter*in). Aufgrund der Fragmentierung der Versorgung mussten die Eltern oft mehrere Ansprechpartner*innen rekrutieren, um die individuellen Bedarfe und Bedürfnisse abzudecken.

„Weil es niemanden gibt, der die Fäden in der Hand hält und alles koordiniert. An den ich mich wenden kann, egal, worum es geht, ob es um Osteopathie geht oder um ein Hilfsmittelrezept oder sonst was - das geht nie über eine zentrale Stelle, sondern vieles wird einfach von mir gemacht, weil ich es selbst entscheide, selbst in die Hand nehme und einfach ausprobiere.“

„Wir haben eher eine Kontaktliste, damit wir wissen, in welchem Fall wir uns an wen wenden müssen.“

„Zum Glück kommt die Kinderärztin zu uns nach Hause, sodass wir nicht gleich ins Krankenhaus fahren müssen. Aber ich denke, das hängt schon mit ihrer Persönlichkeit zusammen, dass sie sich ein bisschen mit dem Thema SMA beschäftigt.“

Prozessevaluation der CM-Intervention (nur IG)

Die folgenden vier Subcodes bilden die Prozessevaluation der CM-Intervention ab, welche von den Eltern der IG bewertet wurde.

(a) Subcode: CM-Themen

Die berichteten CM-Themen schienen relativ unabhängig vom Zeitpunkt der Befragung zu sein. Vielmehr variierten sie tendenziell zwischen den befragten Eltern und blieben über die Messzeitpunkte stabil.

Das am häufigsten genannte CM-Thema war die Koordination regelmäßiger Versorgungstermine in verschiedenen Fachabteilungen des Muskelzentrums. Die Eltern betonten die effiziente Zusammenlegung von Terminen in einem kurzen Zeitraum durch die Case Managerinnen, um wiederholte Besuche im Muskelzentrum zu vermeiden (z. B. während eines geplanten stationären Aufenthalts zur Medikamentengabe). Sie berichteten, dass die Case Managerinnen sowohl die Abteilungen als auch sie selbst an die geplanten Termine erinnerten. So entstand ein „automatisierter Prozess“, auf den sich die Eltern verlassen konnten, ohne selbst aktiv werden zu müssen. Außerdem ermöglichten die Case Managerinnen eine flexible Terminverschiebung.

„Mit der Case Managerin geht alles sehr schnell. Sie verbindet alle unsere Termine sehr gut miteinander, sodass wir nicht zweimal zum Muskelzentrum gehen müssen oder zu viele Termine an einem Tag haben.“

Die Eltern berichteten, dass sie bei der Organisation von Hilfsmitteln, beim Wechsel des häuslichen Pflegedienstes/der behandelnden Klinik, bei Eltern-Kind-Kuren und bei der Organisation von Rezepten oder Röntgenbildern durch die Case Managerinnen unterstützt wurden. Darüber hinaus half das CM beim Auf- und Ausbau des (lokalen) Versorgungsnetzes, indem Kontaktadressen vermittelt wurden.

„Ich nutze das Case Management auch für Rezepte und Ähnliches. Die Case Managerin organisiert die Rezepte und schickt sie mir zu, oder auch Röntgenbilder vom Orthopäden - darum muss ich mich nicht mehr kümmern! Ich schreibe ihr eine E-Mail, oder wir besprechen es am Telefon, und dann kümmert sie sich tatsächlich um alles.“

„Ich wollte den häuslichen Pflegedienst wechseln. Die Case Managerin hat sich das angeschaut und sich mit dem Sozialdienst in Verbindung gesetzt, damit der sich darum kümmert. Dann haben sie nach einem neuen Pflegedienst gesucht und mir die Kontaktdaten gegeben - und es hat funktioniert.“

Darüber hinaus beschrieben die Eltern eine Vermittlerrolle der Case Managerinnen. Durch ihre medizinische Kompetenz fühlten sich die Eltern im Austausch mit Fachkräften oder der Krankenkasse unterstützt. Wenn sie Anfragen an bestimmte Ärzte einzelner Fachabteilungen im Muskelzentrum hatten, leiteten die Case Managerinnen diese weiter und informierte sie anschließend über die entsprechende Antwort. Die Case Managerinnen unterstützten bei der wiederkehrenden Kommunikation mit Krankenkassen oder Behörden. Sie kümmerten sich um Empfehlungsschreiben, halfen bei Widerspruchserklärungen und kommunizierten manchmal sogar selbstständig mit Behörden.

„Ich finde es gut, dass man nicht immer als Vermittler dazwischensteht. Denn es ist besser, wenn die ärztlichen Kollegen miteinander reden, als wenn ich - als Mutter und als Laie, was die Fachbegriffe angeht - dazwischenstehe.“

„Ich habe das Thema „Injektionen“ bei der Case Managerin angesprochen. Mein Sohn war nach der letzten Injektion traumatisiert, er weinte eine Woche lang. Die Case Managerin half mir, eine Lösung zu finden, wie wir es beim nächsten Aufenthalt anders machen können.“

„Ich hatte auch eine Frage an Frau Dr. P. und habe mich an die Case Managerin gewandt, weil ich keine Daten von Frau Dr. P. habe und sie auch telefonisch nicht schnell zu erreichen ist. Und die Case Managerin hat meine E-Mail an Frau Dr. P. weitergeleitet.“

„Was den Elektrorollstuhl angeht oder den Busumbau für den Liegendtransport meiner Tochter - da hatte die Case Managerin viel Kontakt mit den Behörden in unserem Landkreis. Sie hat mir das einfach abgenommen, sodass ich mich nicht mehr darum kümmern musste. Und dann hat sie mir ein Feedback gegeben.“

Darüber hinaus beschrieben die Eltern eine Begleitfunktion des CM. Die Case Managerinnen erkundigten sich in regelmäßigen Telefonaten nach dem Wohlbefinden und der Lebenssituation der Familie und informierten sich über den aktuellen Stand der Therapien, Unterstützungs- und Entlastungsbedarfe des Kindes.

„In den Telefonaten ging es um die Versorgung von M.: wie es aktuell aussieht, ob noch Unterstützungsbedarf besteht, wie es uns geht - wie die Eltern entlastet werden können.“

„Eigentlich sprechen wir hauptsächlich über die Versorgung von L.: Wie es zum Beispiel mit dem Sanitätshaus läuft, ob es Schwierigkeiten mit der Krankenkasse gibt, wie die Therapie läuft und wann er in den Kindergarten kommt.“

„Wir besprechen auch die allgemeine Situation, wie es einem persönlich geht und was das Kind belastet. An solchen Themen arbeiten wir also während der Telefonate.“

Der CM diente auch als Informationsquelle. Die Eltern erhielten Informationen über neue Versorgungsmöglichkeiten oder sozialrechtliche Fragen, die sie direkt mit den Case Managerinnen besprechen konnten.

„Risdiplom ist jetzt genehmigt. Also haben wir jetzt auch mit der Case Managerin gesprochen, dass wir auf jeden Fall mit Dr. L. ein Gespräch führen wollen, was diese Umstellung auf Risdiplom für uns bedeuten könnte.“

(b) Subcode: Kontakt mit der Case Managerin

Dieser Code beschreibt die Kontaktgestaltung zwischen den Familien und den Case Managerinnen. Er betrifft sowohl die Wahrnehmung des Kontakts durch die Eltern als auch die Gestaltung des Kontaktrahmens (z. B. Häufigkeit des Kontakts, Art des Kontakts usw.). Während der T0- und T1-Interviews beschrieben die Eltern eine „Anlaufphase“ mit dem CM. Die Case Managerinnen und Eltern nutzten diese Phase, um Erwartungen zu klären und das CM zu personalisieren. Dazu gehörte eine detaillierte Bewertung des Status quo der Versorgung des Kindes sowie die Ermittlung von Bedarfen und Bedürfnissen der Familien.

„Das erste Gespräch mit der Case Managerin verlief positiv. Die Situation ist für uns alle neu und wir müssen uns alle an den Gedanken gewöhnen, dass wir jetzt mit dem CM anfangen und loslegen können.“

Die Eltern beschrieben heterogene Kontaktmuster. Während einige Familien regelmäßig geplante Gespräche mit individuell festgelegter Häufigkeit bevorzugten (z. B. 1 Mal pro Monat, alle 2-6 Monate), gab es ebenfalls Eltern, die das CM eher nach Bedarf nutzten. Zusätzlich existierte eine „Hybridform“ aus regelmäßigen Terminen und Kontaktaufnahme bei Bedarf, die als ein „permanentes in Kontakt bleiben“ beschrieben wurde. Der bevorzugte Kontaktkanal war per Telefon oder E-Mail, während persönliche Treffen seltener vorkamen (z. B. während eines stationären Aufenthalts).

„Ich habe Termine mit der Case Managerin vereinbart, um zu besprechen, was uns gerade beschäftigt, ob wir Fragen haben und wie uns weitergeholfen werden kann.“

„Bei uns ändert sich jetzt nicht alles so schnell, dass ich jeden Monat etwas Neues fragen kann. Ich muss also nicht ständig anrufen. Aber, wenn ich etwas nicht wusste oder nicht hinbekam, dann nutzte ich das CM.“

„Wir besprechen jedes Mal den Termin für das nächste Telefonat, etwa alle sechs Wochen. Aber wenn ich zwischendurch eine Frage habe, schreibe ich ihr sofort und sie antwortet noch am selben Tag. Wir haben also Termine für die Telefonate und wenn etwas dazwischenkommt, dann besprechen wir das zusätzlich.“

Zum Zeitpunkt der T2-Befragung änderte sich die Kontakthäufigkeit aufgrund der Zulassung neuer Medikamente. Vor allem in der Anfangsphase eines neuen Medikaments gab es einen hohen Informationsbedarf seitens der Eltern sowie medizinische Rückfragen seitens des Muskelzentrums.

„Wir hatten gelegentlich ein paar neue Fragen an die Case Managerin, weil das neue Medikament etwas ganz Anderes, etwas ganz Neues war. Vor allem im Bereich der Abklärung von Nebenwirkungen zum Beispiel. Dann gab es auch mal Anfragen über die Uniklinik Freiburg, wie die Verträglichkeit mit anderen Medikamenten, vor allem Antibiotika, aussieht und solche Geschichten. Also der Kontakt ist ein bisschen häufiger als zu Spinraza-Zeiten.“

Über alle Messzeitpunkte hinweg beschrieben die Eltern den Kontakt mit den Case Managerinnen als verständnisvoll, jederzeit erreichbar und effizient. Nachgefragte Themen wurden angemessen und vollständig behandelt und Versorgungsoptionen wurden verständlich erklärt.

„Die Case Managerin kann verstehen, wie es uns geht und ich darf jederzeit anrufen und störe sie nicht - das ist wichtig für uns Eltern.“

„Die Case Managerin ist immer für uns da. Wir stehen in gutem Kontakt und sie antwortet mir sofort, wenn ich eine E-Mail schicke.“

„Die Case Managerin hat sich Zeit für die Besprechung der Themen genommen und mir gut zugehört. Was wir besprochen haben, wurde sofort umgesetzt.“

(c) Subcode: Gesamtbeurteilung des CM

Dieser Code beschreibt eine elterliche Gesamtbeurteilung der CM-Intervention in Bezug auf Nutzen und Machbarkeit, Entlastung und Integration in das eigene Versorgungsmanagement der Familien.

Da die CM-Intervention erst zum Zeitpunkt T0 begonnen hatte, waren die Ergebnisse der T0- und T1-Bewertungen relativ ähnlich und werden daher zusammengefasst dargestellt. Die meisten Eltern beschrieben die Case Managerinnen als feste und kompetente Ansprechpartnerinnen, die „im Hintergrund organisierten“ und die bei jedem Problem zu Rate gezogen werden konnten. Durch das CM erhielten die Eltern eine individualisierte Versorgungsorganisation, die sich durch Unmittelbarkeit und Verlässlichkeit in der

Rückmeldung auszeichnete. Sie berichteten von einer Verringerung der Arbeitsbelastung innerhalb der Versorgungsorganisation durch die Möglichkeit, Aufgaben zu delegieren. Die Case Managerinnen sorgten für Kontinuität im Versorgungsnetz inmitten einer hohen Fluktuation der Fachkräfte im Muskelzentrum.

„Ich finde es gut, dass ich nur eine Kontaktperson habe, die sich dann um den Rest kümmert. Innerhalb von 2-3 Tagen war eine Lösung gefunden und was ich wollte, habe ich bekommen. Mit der Case Managerin geht alles sehr schnell.“

„Was mir auch sehr gut gefallen hat: Wir hatten ein großes Problem und die Case Managerin hat sich darum gekümmert und uns Tipps gegeben, an wen wir uns wenden können. Für mich ist es das perfekte „persönliche Paket“. Die Case Managerin kennt unsere Situation und uns. Man ist also wirklich willkommen und wird als Mensch wahrgenommen und bekommt dann auch eine individuelle, persönliche Entscheidung.“

„Dinge, für die ich im Moment nicht die Energie habe, kann ich jetzt abgeben. Das bedeutet, dass der „Bürotag“ für mich einfacher geworden ist. Die Case Managerin entlastet mich von Telefon-Odysseen, so dass ich nicht mehr selbst einzelne Ärzte erreichen muss. Ich muss nur noch eine E-Mail schreiben und alles läuft wie von selbst.“

Eltern, die das CM weniger regelmäßig nutzten, beschrieben ein Gefühl der Sicherheit durch die bloße Existenz dieses Modells zur Versorgungskoordination. Durch das CM gäbe es die Möglichkeit zum regelmäßigen Austausch, sodass aufkommende Probleme in der dynamischen Versorgung rechtzeitig besprochen werden könnten. Durch das Angebot eines offenen Gesprächs auf Anfrage berichteten die Eltern, dass sie sich inmitten der vielen verschiedenen Versorgungsoptionen nicht allein gelassen fühlten.

„Im Moment habe ich keine so großen Probleme, dass ich das CM intensiv nutze, aber ich weiß, dass ich mich an die Case Managerin wenden kann, wenn ich etwas brauche. Ich fühle mich gut aufgehoben und betreut, weil es jemanden gibt, der mir helfen kann, wenn ich es alleine nicht schaffe.“

„Ich nutze das CM als Austausch, um sicher zu gehen, dass man auf einem guten Weg ist. Ob die Case Managerin mir immer helfen kann oder nicht; zumindest bekomme ich eine Antwort. Ich informiere sie über den Stand der Pflege und habe das Gefühl, dass da jemand ist, der einen an die Hand nimmt.“

Einige Eltern berichteten jedoch, dass sie bereits über ein etabliertes Versorgungsnetz verfügten, in dem eine gute Interaktion zwischen ihnen und den Fachkräften existierte. Sie beschrieben sich selbst als bereits erfahren und daran gewöhnt, die Versorgungsorganisation größtenteils selbst zu übernehmen. Andere Eltern hatten bereits Ansprechpartner*innen in anderen Einrichtungen, z. B. im SPZ oder im Frühförderzentrum. Aus diesen Gründen erlebten sie keinen wesentlichen Einfluss der CM-Intervention auf die Behandlungsintegration. Einige Eltern gaben an, dass sie das CM unmittelbar nach der Diagnose als unterstützend empfunden hätten.

„Nun, ich muss sagen, dass die Interaktion zwischen dem Arzt und der Familie immer sehr gut war. Ich kann also nicht sagen, dass es sich enorm verbessert hat.“

„Bislang hat sich die Versorgung nicht grundlegend geändert. Das liegt an unserer Routine. Ich meine, wir haben uns vier Jahre lang mit der Krankheit beschäftigt und man hat seine Therapeuten, seine Ärzte, seine regelmäßigen Termine.“

„Wenn wir ein Problem haben, wenden wir uns in erster Linie an unseren Kinderarzt oder an das SPZ. Wenn es ein fachärztliches Problem ist, rufen wir immer direkt die entsprechende Abteilung im Muskelzentrum an. Ob irgendwann eine Verbesserung durch das CM eintreten wird, kann ich im Moment nicht beurteilen.“

„Vor zwei, drei Jahren wären wir froh gewesen, wenn wir dieses Case Management gehabt hätten. Zu Beginn der Diagnose, als wir noch sehr unerfahren waren, wäre ein Case Management sicherlich wichtig gewesen. Aber später, wenn man ein gewisses Stadium erreicht hat, braucht man es vielleicht weniger.“

„Für die neuen SMA-Patienten ist das CM sicherlich viel interessanter: Wie kann ich einen Behindertenausweis bekommen? Woher bekomme ich einen Anbieter für häusliche Pflege? Wir mussten das alles alleine durchstehen. Diejenigen, die jetzt nach uns kommen, werden es viel leichter haben, wenn das CM eingeführt ist und in Kraft tritt.“

Eltern, deren Wohnorte weiter vom Muskelzentrum in Freiburg (Lokalisation der CM-Intervention) entfernt waren, berichteten, dass das CM nicht in ihr lokales Netzwerk der wohnortnahen Versorgung hineinreicht. Sie gaben an, dass der Nutzen wahrscheinlich am größten sei, wenn der Großteil der Versorgung in der Region angeboten würde.

„Ich überlege immer, ob es aus der Ferne machbar ist, mit dem Case Management, mit der Betreuung von Freiburg bis zu unserem Wohnort. Telefonisch kann man viel erreichen, aber oft muss man doch persönlich erscheinen.“

„Unser Problem ist, dass wir bundesländerübergreifend arbeiten müssen. In Baden-Württemberg ist unser Muskelzentrum, aber wir wohnen in einem anderen Bundesland und haben unsere Therapeuten hier.“

Eine interviewte Person wies darauf hin, dass er das CM noch als sehr theoretisch, abstrakt und nicht greifbar empfindet. Darüber hinaus berichteten Eltern, dass sie bestimmte organisatorische oder koordinierende Aspekte der Versorgung nicht an die Case Manager*innen delegieren konnten oder wollten (z. B. längerfristige, umfangreichere Projekte, wie die Planung einer barrierefreien Wohnung).

„Ich merke noch nicht, dass ich irgendwie einen Nutzen daraus ziehen könnte. Für mich ist dieses CM noch sehr theoretisch. Ich kann es noch nicht beziffern. Ich kann nicht wirklich sagen, dass es ein zusätzliches Zahnrad ist, das in das System eingreift und uns irgendwie Tätigkeitsbereiche abnimmt.“

„Dieses Problem würde wahrscheinlich sowieso wieder auf uns zurückkommen, also habe ich selbst an der Pforte angerufen und wurde mit der urologischen Abteilung verbunden.“

„Ich kann mir nicht vorstellen, dass die Case Managerin bei der Baubehörde anruft und einen Antrag stellt oder etwas mit dem Gutachter klärt, was unsere eigene Wohnung betrifft... Das ist etwas, was man nur selbst machen kann.“

In den T2-Interviews berichteten die meisten Eltern von einem insgesamt eingespielten Umgang mit dem CM. Sie hätten die Case Managerin als feste Ansprechpartnerin in ihr eigenes Versorgungsmanagement integriert. Durch die offizielle Benennung des CM als Koordinationsmöglichkeit erlebte die Mehrheit der Eltern eine systematischere Versorgung. Sie beschrieben, dass die Case Managerinnen vor allem die Vereinbarung regelmäßiger Kontrolltermine (z. B. regelmäßiges Röntgen der Wirbelsäule zur Skolioseprophylaxe) initiierten.

„Also ich finde es toll, dass ich nur einen Ansprechpartner habe, der sich dann um den weiteren Verlauf meines Anliegens kümmert. Die Terminkoordination läuft viel effizienter. Der L. muss regelmäßig ins Schlaflabor und die Case Managerin organisiert das alles selbst. Ich muss mich nicht mehr darum kümmern.“

„Man wusste genau, an wen man sich wenden musste, weil es geregelt war. Und man kam sich nicht blöd vor, wenn man sich an die Case Managerin wandte, weil man das offiziell durfte.“

„Die Case Managerin und ich telefonieren einmal kurz vor dem regulären stationären Aufenthalt, um zu klären, welche Termine notwendig sind - wir haben einen „Fahrplan“ entwickelt und gehen ihn durch.“

Die Eltern merkten an, dass Zulassungen neuer Medikamente die CM-Organisation veränderten. Durch die potentiell höhere Frequenz von stationären Aufenthalten zu Beginn der Medikamentenumstellung hatten einige Familien intensiveren Kontakt zu den behandelnden Ärzt*innen. Sie konnten einzelne Fragen direkt vor Ort klären. Dies führte in einigen Fällen dazu, dass das CM von den Eltern weniger intensiv genutzt wurde. Dennoch wurde das CM weiterhin als Anlaufstelle für Fragen zwischen den stationären Aufenthalten/ambulanten Terminen genutzt.

„Da wir wegen des neuen Medikaments derzeit jede Woche in Freiburg sind, konnte ich jede Woche direkt mit dem Arzt sprechen. Eine bessere Antwort kann ich nicht bekommen.“

„Er hat dann hauptsächlich ambulante Termine wegen des neuen Medikaments. Deshalb finde ich es sehr wichtig, ein CM zu haben. Wenn man zwischen den ambulanten Terminen eine Frage hat, kann man sie stellen. Es ist toll, dass man nicht bis zum nächsten ambulanten Termin in vielleicht drei Monaten warten muss.“

Zum Zeitpunkt der T2-Befragung wurde jedoch noch deutlicher, dass nicht alle Eltern das CM als gleichermaßen hilfreich bewerteten.

„Wir mussten immer noch viele Dinge selbst machen. Kontakte knüpfen oder Formulare ausfüllen ... sich wirklich um die Sache kümmern. Die Arbeit, wenn man etwas von den Krankenkassen oder vom Landratsamt will, bleibt immer noch bei der Familie selbst.“

„Also es klappt nicht, dass man einfach kurz sagt: J. braucht Ergotherapie und alles andere kann jemand anderes machen. Vielleicht melden die sich ja trotzdem noch mal: Was sind Ihre Ziele, was wollen Sie? Was kann ihre Tochter machen? Zu welchen Zeiten? Das muss man selbst organisieren.“

(d) Subcode: Gewünschte CM-Elemente

Dieser Code beschreibt die von den Eltern gemachten Vorschläge zur Weiterentwicklung der CM-Intervention. Die befragten Eltern beschrieben zwei Hauptkomponenten, die ihrer Meinung nach das CM verbessern oder vervollständigen würden. Dazu zählte ein rechtzeitiger und intensiver Informationsfluss über Begleitsymptome der SMA (z. B. Skoliose). In diesem Zusammenhang wünschten sich die Eltern eine kontinuierliche Supervision des Versorgungsbedarfs durch das CM und ein präventives Angebot geeigneter Versorgungsoptionen. Das CM sollte idealerweise Vor- und Nachteile von Versorgungsoptionen (z. B. Hilfsmittel) aufzeigen, hilfreiche Kontaktempfehlungen geben (z. B. Kliniken für Wirbelsäulenoperationen) und über Rechte (z. B. Freistellung von der Arbeit für stationäre Aufenthalte) sowie Pflichten (z. B. frühzeitige Einholung von Genehmigungen) aufklären. Infolgedessen wären die Eltern weniger auf Informationen aus anderen, potentiell eher unzuverlässigeren Quellen angewiesen (z. B. andere betroffene Eltern, das Internet). Darüber hinaus merkten die Teilnehmenden an, dass eine Ergänzung des CM durch eine leicht zugängliche, aktualisierte Informationsbündelung (z. B. einen Leitfaden, eine Übersichtsbrochure oder eine App, die die neuesten Forschungsergebnisse anzeigt) sie in ihrer eigenen Versorgungsorganisation unterstützen würde.

„Man muss alles selbst recherchieren, was Medikamente und Hilfsmittel angeht. Vielleicht bekommt man Informationen durch den Kontakt mit anderen Familien, aber vom Arzt kommt nichts. Es wäre gut, wenn das CM den Versorgungsbedarf überwachen und mir im Voraus mitteilen würde, was der nächste Schritt sein sollte. Ich hatte oft das Gefühl, dass viele Dinge schon früher hätten geschehen müssen. Zum Beispiel: „Jetzt wäre eine Gehhilfe gut.“ Und dann würde mir die Case Managerin Empfehlungen, welches Sanitätshaus dafür in Frage käme.“

„Es geht um eine Wirbelsäulen-OP: Wir haben schon einige Gespräche und viele Höhen und Tiefen hinter uns. Wir haben mehr als ein halbes Jahr recherchiert, welches Krankenhaus so eine spezielle Operation an der Wirbelsäule durchführt. Welche Techniken gibt es und was sind die Vor- und Nachteile? Mit welchen Krankenhäusern haben andere Eltern vielleicht gute Erfahrungen gemacht? Für Eltern mit einem neu diagnostizierten Kind wäre da ein Überblick durch das CM sicher hilfreich.“

„Oder eine App, in der wir wirklich auf dem Laufenden gehalten werden, auch was die Forschung angeht, vor allem in Bezug auf Medikamente. Man liest ständig in der Presse darüber, aber es wäre gut, wenn wir die Informationen wirklich aus medizinischer Perspektive zur Verfügung hätten.“

Die zweite wichtige Komponente betraf die Anregung und Förderung der Vernetzung innerhalb des individuellen Versorgungsnetzes. Die Eltern wünschten sich mehr Kooperation und Kommunikation zwischen den einzelnen Akteur*innen. Sie schlugen vor, dass es die Aufgabe der Case Manager*innen sein könnte, Zuständigkeiten zu koordinieren und zu klären. Insbesondere eine Verbindung zwischen dem CM und dem lokalen Versorgungsnetz (lokale Therapeuten, Kinderarzt) wäre gemäß der Befragten sinnvoll. Der/die Case Manager*in sollte eine Kontaktperson mit SMA-spezifischen Kenntnissen für die lokalen Therapeuten sein. Auf

diese Weise erhofften sich die Eltern, mögliche Versorgungslücken besser abdecken zu können.

„Ich würde mir wünschen, dass es eine Rückkopplung zwischen dem Case Manager und dem Kinderarzt gibt - dass sie sich einfach miteinander in Verbindung setzen. Unsere Krankenkasse schreibt zum Beispiel immer an unseren Kinderarzt, wenn sie Fragen zu Rezepten hat. Oder wenn es zum Beispiel einen Widerspruch gibt, kann sich unser Kinderarzt vielleicht einfach an das CM wenden.“

„Ich finde, dass die Kommunikation zwischen den Physiotherapeuten, dem Sanitätshaus und allen anderen Leistungserbringern noch ein bisschen fehlt. Ich würde mir wünschen, dass das CM dies in die Hand nimmt und für mehr Kommunikation zwischen ihnen sorgt.“

„Ich denke, dass dies wahrscheinlich nicht nur speziell für SMA gilt, sondern vielleicht auch für andere Bereiche, in denen geforscht wird und anschließend neue Medikamente auf den Markt kommen. Das durch das CM abgedeckt wird: Wie muss man die Krankenkasse informieren? Wie muss man die Apotheke informieren? Welche Informationen muss man vom Hersteller des Medikaments bekommen? Damit es wirklich eine nahtlose, reibungslose Versorgung geben kann.“

Veränderung der Behandlungsintegration (T1/T2)

Im Rahmen der T1- und T2-Befragung wurden Veränderungen in der Behandlungsintegration durch die Eltern über die Messzeitpunkte hinweg bewertet. Der Fokus lag dabei auf solchen Veränderungen, die die Teilnehmenden der KG und IG gleichermaßen betrafen. Die Veränderungen, die als direkte Folge des CM beschrieben wurden, spiegeln sich in erster Linie in den oben genannten Prozessevaluationscodes wider.

In den T1-Interviews berichteten die Teilnehmer beider Gruppen über COVID-19-bedingte Veränderungen bei der Behandlungsintegration. Durch den Wegfall von Therapien im Kindergarten und in der Schule mussten die Eltern therapeutische Anwendungen zu Hause selbst durchführen. Die stationären Aufenthalte änderten sich, weil nur noch ein Elternteil anwesend sein durfte.

„Am Anfang haben wir wenig Veränderungen durch die Pandemie bemerkt. N. konnte noch den Kindergarten besuchen, weil er ein Kind mit besonderen Bedürfnissen war, und erhielt weiterhin die entsprechenden Behandlungen wie Ergotherapie, Sprachtherapie und Physiotherapie. Jetzt muss er zu Hause bleiben. Für mich ist die Situation noch schwieriger, weil ich all diese Anwendungen, die jetzt eingestellt wurden, kompensieren muss.“

„Wir als Eltern haben momentan keine Chance, gemeinsam in einem Krankenhaus zu sein. Das Kind bekommt Angst, wenn man so viele Termine mit dem medizinischen Personal hat, deshalb ist es für mich umso wichtiger, dass mein Mann dabei sein kann, denn jemand muss sich um das Kind kümmern.“

In den T2-Interviews berichteten Eltern beider Gruppen von Veränderungen in der Behandlungsintegration aufgrund der Zulassung neuer Medikamente. Diese waren anfangs oft mit häufigeren stationären Aufenthalten verbunden. Langfristig bedeutete dies jedoch insgesamt weniger und kürzere stationäre Aufenthalte. Regelmäßige Versorgungstermine (z. B. orthopädische Untersuchungen im Muskelzentrum) mussten oft in einem kürzeren Zeitraum angesetzt werden. Einige KG-Teilnehmer berichteten, dass diese Untersuchungen

oft auf einzelne Tage fielen, was mit einem erhöhten Reiseaufwand zum Muskelzentrum verbunden war.

„Denn sonst war immer alles mit dem Krankenhausaufenthalt zur Spinraza-Verabreichung verbunden. Man ist hingefahren, hat vor Ort einen physiotherapeutischen Check gemacht, hat vor Ort einen Lungentest gemacht und die Herzmuskulatur wurde untersucht. Das fällt jetzt auf sehr schlecht terminierte Einzeltage. Das heißt, wir fahren 120 Kilometer hin und zurück. Und wir müssen hoffen, dass alle Termine an einem Tag stattfinden und dass kein Notfall reinkommt, sonst müssen wir meistens unter der Woche wiederkommen.“

Die Teilnehmenden der IG berichteten dagegen von einer effizienten Terminkoordination mit Hilfe der Case Managerinnen im Hinblick auf wechselnde Frequenzen der stationären Aufenthalte.

„Die Case Managerin plant die Termine so, dass wir nicht ständig ins Muskelzentrum kommen müssen und dass im besten Fall alles am gleichen Tag stattfindet. Das ist sehr wertvoll für uns, weil es jedes Mal eine lange Reise ist.“

Darüber hinaus beschrieben die Eltern in beiden Gruppen reguläre nächste Versorgungsschritte aufgrund der Entwicklung des Kindes (z. B. Eintritt/Wechsel in den Kindergarten/die Schule) und des Krankheitsverlaufs (z. B. Anpassung von Hilfsmitteln an den aktuellen Gesundheitszustand; Magnetstäbe für flexible Wirbelsäulenversteifung; Notwendigkeit einer Schulbegleitung).

„Mein Sohn macht dieses Jahr seinen Realschulabschluss und wird dann die Schule wechseln. Darauf bereiten wir uns bereits intensiv vor und haben uns im Vorfeld über die Möglichkeiten informiert. Jetzt klären wir, wer dafür zuständig ist, welche Möglichkeiten der Schulbegleitung es gibt und sind in Kontakt mit der neuen Schule. Wir brauchen etwa ein Jahr, um das im Vorfeld zu organisieren.“

„Mit der Skoliose kamen natürlich neue Schritte auf uns zu. Wir hatten ziemlich viele Termine wegen des Korsetts. Das heißt: Dutzende von Terminen zur Korsettanpassung, erstes Kontrollröntgen - passte nicht. Zwei weitere Termine zur Anprobe. Termin für das zweite Kontrollröntgen. Jetzt gerade durch dieses Ding; innerhalb von sechs Wochen, sechs Termine, würde ich sagen.“

(a) Subcode: Veränderungen in Informationen zu SMA

Die befragten Eltern beider Gruppen berichteten, dass sich ihre Strategie zur Beschaffung von Informationen über SMA kaum verändert hat. In den T1-Interviews beschrieben die Teilnehmenden der KG Zoom-Webinare als Folge der Einschränkungen durch die COVID-19-Pandemie. Diese Webinare wurden von Muskelzentren angeboten sowie von der Deutschen Gesellschaft für Muskelerkrankungen unterstützt. Eine interviewte Person betonte den hohen Informationsgehalt dieser Webinare und die Effizienz durch die Erreichbarkeit von zu Hause aus. Zum Zeitpunkt der T2-Interviews fanden diese Seminare jedoch nicht mehr statt.

„Daran hat sich nichts grundlegend geändert. Wenn ich Informationen benötige, kümmere ich mich selbst darum, es ist also noch nie jemand zu mir gekommen und hat mir irgendwelche Informationen präsentiert.“

„Durch COVID-19 hatten wir Zoom-Treffen, bei denen einzelne Spezialisten Seminare abhalten. Ich bin dafür, weil man so viel besser über mögliche Behandlungen informiert ist oder worauf man zum Beispiel bei Dysplasie achten sollte.“

(b) Subcode: Veränderungen im Versorgungsnetz

Die Teilnehmenden beider Gruppen berichteten über regelmäßige Veränderungen im Versorgungsnetz aufgrund eines zunehmenden Bedarfs an symptomatischen Behandlungen (z. B. durch Logopäden, Ergotherapeuten) oder eines Wechsels des primär behandelnden Krankenhauses.

„Ein paar neue Orthopädietechniker sind dazugekommen, die auch alle ziemlich weit von unserem Wohnort entfernt sind. Sie sind auf bestimmte Orthesen spezialisiert. Also für das Korsett fahren wir nach Z. ca. 80 km, für die Ringorthesen auch ca. 80/90 km wieder woanders hin.“

Zum Zeitpunkt der T2-Befragung beschrieben die Befragten eine zunehmende Komplexität der Erkrankung, die vor allem auf Zulassungen neuer Medikamente zurückzuführen ist.

Die Teilnehmenden der KG berichteten zudem von einem anhaltenden Mangel an Vernetzung, Kontinuität und Zusammenarbeit sowie von fehlenden Ansprechpartner*innen innerhalb des Versorgungsnetzes.

„Es hat sich nichts geändert. Es ist immer noch genau dasselbe - alles liegt in unserer Hand. Es gibt keinen Ansprechpartner, der uns irgendwie über verschiedene Dinge auf dem Laufenden hält. Es gibt immer nur diese einzelnen Kontakte. Aber Neuigkeiten über SMA oder über Therapiemethoden zu erfahren - das liegt immer noch in unserer Hand. Jedes Mal, wenn wir ins Krankenhaus gehen, müssen wir versuchen, mit den Verantwortlichen in Kontakt zu kommen und sie zu fragen.“

„Es wäre für uns Eltern wünschenswert, wenn sich etwas verbessern würde, dass nicht alles über uns läuft und dass die Vernetzung besser wird. Aber das sehe ich überhaupt nicht. Ich denke, es ist eher ein Chaos - die Kommunikation ist eher schlechter als besser.“

In der IG konnte das CM gemäß den befragten Eltern die durch die mögliche Umstellung auf ein neues Medikament verursachte Unsicherheit auffangen und die Eltern in ihrem Versorgungsmanagement hinsichtlich der neuen Herausforderungen stärken (z. B. Eigenverantwortung in Bezug auf die Risdiplam-Organisation).

„Es hat sich verbessert, es ist einfacher geworden. Ich habe eine Ansprechpartnerin, die Case Managerin ist. Ich schicke ihr meine E-Mail und sie kümmert sich um alles. Nicht: Ich muss jetzt eine E-Mail an Dr. T. und zusätzlich an Professor Dr. F. schicken oder wie auch immer. Ich habe also eine Ansprechpartnerin, die sich um alles kümmert.“

„Ich hatte ein paar Schwierigkeiten mit der Apotheke bezüglich der Organisation von Risdiplam. Ich habe mich immer wieder mit der Case Managerin in Verbindung gesetzt und besprochen, wie ich vorgehen kann. Wir haben eine Lösung gefunden und dabei hat mir das CM sehr geholfen. Die Case Managerin hat mich einfach weitergeleitet und mir eine Telefonnummer gegeben und am Ende hat alles gut geklappt.“

6.3.4.1. Bewertung des Assessment-Bogens „Mein SMA-Profil“

Für die regelmäßige Bewertung der Versorgungssituation der teilnehmenden Kinder wurde ein tabellarischer Dokumentationsbogen entwickelt, der alle relevanten Informationen zur Versorgung bündelte. Darin enthalten waren Fragen zu Personen und Institutionen, die an der Versorgung beteiligt sind; Diagnosen; aktueller medizinischer Versorgung; medikamentöser Behandlung; Impfungen; Unterstützung in der häuslichen Pflege; Schul-/Kindergartenbegleitung; psychologische/therapeutische Versorgung der Eltern; Informationen zur Lebenswelt und zum Alltag. Um Veränderungen in der Versorgung zu berücksichtigen füllten die Case Managerinnen im Erstgespräch zunächst ein „Basisbogen“ gemeinsam mit den Familien aus. Im Rahmen des wiederkehrenden Kontakts wurden sog. „Verlaufsbögen“ implementiert, die dem „Basisbogen“ inhaltlich ähnlich waren, jedoch lediglich die Veränderungen innerhalb der Versorgung explorierten. Im Rahmen der semi-strukturierten Interviews zur Prozessevaluation des CM wurde die Akzeptanz und die Machbarkeit beim Ausfüllen der Assessmentbögen erfragt. Die befragten Eltern empfanden die Dokumentation als verständlich und relevant. Alle wichtigen Fragen/Themenbereiche der Versorgung von SMA-Patient*innen seien darin enthalten gewesen. Die Ausfüllmöglichkeiten waren jedoch abhängig vom Umfang des Versorgungsnetzes und den beteiligten Akteur*innen. Während bei einem Anteil der Familien bestimmte involvierte Institutionen oder Personen gefehlt haben (z.B. Zahnärzt*innen), berichtete ein weiterer Anteil der Befragten, dass sie aufgrund unzureichender Vernetzung nur wenige Angaben machen konnten. Insgesamt sei der Bogen spezifisch auf die Versorgung von Kindern mit SMA zugeschnitten, jedoch primär auf den medizinischen Bereich bezogen. Den befragten Eltern fehlte eine umfassendere Erhebung der aktuellen Lebenssituation inkl. z.B. sozialrechtlicher Fragen oder Probleme, die im Kindergarten bzw. der Schule auftraten. Des Weiteren wurde rückgemeldet, dass die Formatierung nicht optimal sei, da viele mehrseitige Tabellen vorhanden waren.

6.3.5. Gesundheitsökonomische Evaluation

Zur Ermittlung der Interventionskosten dokumentierten die Case Managerinnen die aufgewandte Zeit der Tätigkeiten im Rahmen der Behandlungsintegration für insgesamt N = 19 Familien der Interventionsgruppe. Eine Familie setzte das Case Management nach der Hälfte der Zeit aufgrund einer familiären Veränderung aus, für eine weitere Familie fehlte die Zeitdokumentation. Der dokumentierte Zeitraum lag zwischen 15 und 23 Monaten, abhängig von der individuellen Betreuungsvereinbarung zwischen Case Managerinnen und Familien. Der durchschnittliche Betreuungszeitraum lag bei 19.37 Monaten (SD = 2.61). Referenziert werden die Kosten der Intervention am tariflichen Lohn der beiden Case Managerinnen (Tarifstufe E9; Landesamt für Besoldung und Versorgung Baden-Württemberg, 2021). Der Zeit- sowie Kostenaufwand der Case Managerinnen wurde separat für Tätigkeiten mit und ohne direktem Familienkontakt dokumentiert. Tätigkeiten mit direktem Familienkontakt waren z.B. die Identifikation von Entlastungsbedarf sowie Problemen im Rahmen der Versorgung des Kindes durch regelmäßige Gespräche mit den Familien. Tätigkeiten ohne direktem Familienkontakt waren z.B. die uniklinikinterne Kontaktaufnahme mit verschiedenen Fachbereichen zur Vereinbarung von Versorgungsterminen, Telefongespräche mit Behörden oder die Organisation von Informationen (z.B. Empfehlungen, Röntgenaufnahmen etc.) zum Transfer in andere Versorgungsinstitutionen. Aufgewandte Zeit sowie Kosten für Tätigkeiten mit und ohne direktem Familienkontakt sind in Tabelle 16 dargestellt. Um die Interventionskosten besser abschätzen zu können, wurde der Zeit- sowie Kostenaufwand an einem Betreuungszeitraum von 12 Monaten referenziert (Tabelle 17).

Tabelle 16

Aufgewandte Zeit (Std.) und Kosten (€) im Rahmen des CM für Tätigkeiten mit und ohne direktem Familienkontakt für den durchschnittlichen Betreuungszeitraum von 19,37 Monaten

	Direkter Familienkontakt		Interne Organisation		Gesamt	
	Zeit (Std.)	Kosten (€)	Zeit (Std.)	Kosten (€)	Zeit (Std.)	Kosten (€)
M	3,79	107,76	1,83	52,18	5,62	159,94
min	1,58	45,05	1,00	16,60	3,78	61,65
max	7,03	200,10	3,92	111,43	8,91	253,68
SD	1,45	41,36	0,90	25,71	1,75	49,81

Bei Ermittlung des Verhältnisses zwischen durchschnittlicher Gesamtkosten und Zeitaufwand, ergeben sich 28,46 € Interventionskosten pro Stunde.

Tabelle 17

Aufgewandte Zeit (Std.) und Kosten (€) im Rahmen des CM für Tätigkeiten mit und ohne direktem Familienkontakt für einen Betreuungszeitraum von 12 Monaten

	Direkter Familienkontakt		Interne Organisation		Gesamt	
	Zeit (Std.)	Kosten (€)	Zeit (Std.)	Kosten (€)	Zeit (Std.)	Kosten (€)
M	2,44	69,47	1,15	32,80	3,59	102,27
min	0,75	21,48	0,33	9,48	1,09	30,96
max	5,38	150,07	2,42	68,62	6,69	190,26
SD	1,24	0,59	0,73	0,27	1,43	40,60

Bei Ermittlung des Verhältnisses zwischen durchschnittlicher Gesamtkosten und Zeitaufwand für einen Betreuungszeitraum von 12 Monaten, ergeben sich 28,49 € Interventionskosten pro Stunde.

6.3.5.1. Vergleich von informellen Kosten und Interventionskosten

Die in den Betreuungstagebüchern erfassten Koordinationstätigkeiten der Eltern umfassen Aspekte, die das CM faktisch nicht leisten kann (z.B. Fahrt zur Physiotherapie). Um die dadurch entstandenen informellen Kosten mit den Interventionskosten zu vergleichen, war es zuerst notwendig, die berichteten Koordinationstätigkeiten auf die Aufgaben zu beschränken, denen auch die Case Managerinnen nachkommen würden (s. gelbmarkierte Koordinationstätigkeiten in Tabelle 6). Dadurch ergeben sich 157,80 Std. durchschnittlicher elterlicher Aufwand und 3.187,52 € durchschnittlich aufgewandte elterliche Kosten pro 12 Monate.

6.3.6. Abweichungen gegenüber der ursprünglichen Planung

Das Projekt wurde am 20. Februar 2018 vor der verbindlichen Anwendung der EU-Datenschutzgrundverordnung (DSGVO) am 25. Mai 2018 beantragt. Im initialen Projektantrag wurde das Startdatum der Erhebungsphase für Phase 3 auf Ende 2019/Anfang 2020 gesetzt und jeweils neun Monate Abstand zwischen den einzelnen Messzeitpunkten vorgesehen. Aufgrund der Verschärfung der EU-DSGVO sowie den damit verbundenen neuen Regelungen innerhalb des Universitätsklinikums (z.B. das Verfassen eines umfangreichen Datenschutzkonzepts, welches sowohl projektübergreifende, als auch projektspezifische Anteile enthält; intensive Rücksprachen mit dem uniklinikinternen Datenschutzbeauftragten

sowie allgemeine Unsicherheit hinsichtlich der Umsetzung der neuen DSGVO-Regelungen aufgrund der Anfangsphase) verzögerte sich der Erhebungsbeginn auf April 2020. Um den Zeitplan dennoch einzuhalten, beschloss das Projektteam den Abstand zwischen T1 und T2 auf sechs Monate zu verkürzen. Dies wurde mit der Entwicklung der CM-Intervention abgestimmt: Vor allem zwischen T0 und T1 erschien ein Abstand von neun Monaten sinnvoll, um der Anlaufphase des CM gerecht zu werden. Nachdem sich das CM eingespielt hatte und feste Vereinbarungen zwischen Case Managerinnen und teilnehmenden Familien geschlossen waren, erschien ein kürzeres Zeitintervall zwischen T1 und T2 gerechtfertigt.

Gemäß dem Projektantrag sollte die CM-Intervention durch eine IT-Komponente unterstützt werden. Das im Projektantrag genannte System „RDE-Light“ stellte sich nach erneuter Rücksprache mit dem Zentrum für klinische Studien des Universitätsklinikums Freiburg für diesen Zweck als ungeeignet heraus, da dieses v.a. zur Dateneingabe/-erfassung bei (klinischen) Studien geeignet ist. Aus diesem Grund wurde als Alternative die Strategie verfolgt, als IT-Komponente die App „Meine Uniklinik“ zu nutzen, die von der Firma „Lohmann & Birkner Health Care Consulting GmbH“ in Zusammenarbeit mit dem Universitätsklinikum Freiburg entwickelt wurde. Das SMA-C+-Projekt erschien als sehr geeigneter Use-Case für die App-Entwicklung, da es sich um eine umschriebene Gruppe von Patient*innen bzw. Angehörigen handelt, die aufgrund ihres jungen Alters in den meisten Fällen eine hohe Affinität zu digitalen Anwendungen hat. Nach mehreren gemeinsamen Treffen sowie unter Einbezug des Datenmaterials aus Phase 2 (Ergebnisse aus den semi-strukturierten Interviews mit Eltern von Kindern mit SMA I und II) musste die Zusammenarbeit allerdings beendet werden. Zum einen war die sich in der Entwicklung befindliche App noch nicht an einem Punkt, dass sie Aufgaben, die spezifisch für das CM bei SMA sind, übernehmen konnte. Zum anderen wurde die App innerhalb des Klinikums genutzt, um im Rahmen der COVID-19-Pandemie Besucherausweise zu administrieren. Aufgrund des fortgeschrittenen Zeitpunkts im Projekt fiel der Entschluss, keine weitere IT-Anwendung in das CM zu integrieren. Aus den Diskussionen mit Entwickler*innen und betroffenen Familien lässt sich jedoch festhalten, dass die Prozesse zwischen Klinik und den betroffenen Familien sehr individuell sind und einer flexiblen Interaktion bedürfen. Auf Nachfrage hinsichtlich einer App-Unterstützung des CM in den semi-strukturierten Interviews aus Phase 2 meldeten die teilnehmenden Eltern zurück, dass diese keinen „doppelten Dokumentationsaufwand“ mit sich bringen dürfe. Zusammenfassend hätte eine App unter Umständen eher zu einer Mehrbelastung der Familien, anstatt zu einer wesentlichen Entlastung geführt. Aus diesem Grund wurde der Fokus zunächst auf die Pilotierung der CM-Intervention gelegt, die in zukünftigen Projekten und im Rahmen der fortschreitenden Digitalisierung des Gesundheitssystems durch IT-Plattformen erweitert werden könnte.

Über eine IT-Plattform sollten zudem ausgewählte, in die Behandlung der Patient*innen involvierte Gesundheitsdienstleistende in das CM eingebunden werden. Nachdem die IT-Komponente wegfiel, erfolgte eine Einbindung vor allem über interne QM-Gespräche im Muskelzentrum, auf Anfrage der Case Managerinnen (z.B. bei Fragen der Eltern an spezifische Behandelnde im Muskelzentrum) sowie über die veranstalteten Symposien. Die Ergebnisse der semi-strukturierten Interviews mit Gesundheitsdienstleistenden in Phase 2 deuteten darauf hin, dass im Versorgungsnetz involvierte Akteur*innen ähnliche Anforderungen an ein CM stellten, wie die befragten Familien. Im Rahmen der CM-Entwicklung wurde zudem festgestellt, dass die Intervention zunächst stärker an den Familienbedürfnissen ausgerichtet werden sollte. Eine intensivere Einbindung von Gesundheitsdienstleistenden ist für eine multiperspektivische Herangehensweise an die CM-Intervention zwar essentiell, konnte jedoch im Rahmen der Projektbedingungen nicht gewährleistet werden.

Auch die Interviews in Phase 3 wurden gemäß der qualitativen Inhaltsanalyse nach Kuckartz (Kuckartz, 2018), statt wie im initialen Projektantrag angegebenen Methode nach Mayring (Mayring, 2022), ausgewertet. Die Gründe hierfür waren dieselben, wie in Abschnitt 6.2.5. angegeben. Des Weiteren entschieden wir uns kürzere Versionen der Fragebögen

„PedsQL“ (PedsQL™ 4.0 SF15, statt PedsQL™ 4.0 Generic Core Scales) und „SF“ (SF-12, statt SF-36) in die wiederkehrende Fragebogenbatterie zu integrieren, damit die teilnehmenden Familien nicht zu viel Zeit zum Ausfüllen aufwenden mussten.

Die durch medizinische und therapeutische Leistungen entstandenen Kosten sollten auf der Grundlage der Selbstauskunft der Familien erhoben und mittels standardisierter Bewertungssätze bestimmt werden. Als Referenzrahmen sollte die durchschnittliche reguläre Versorgung eines/einer SMA-Patienten/SMA-Patientin im Muskelzentrum herangezogen werden. Gemäß der Literatur sowie praktischer Erfahrungen des Muskelzentrums Freiburg unterscheiden sich die anfallenden Kosten in ihrer Höhe und Zusammensetzung stark und sind abhängig davon, ob das Kind ambulant oder stationär behandelt wird sowie von der Medikation, die es erhält. Eine systematische Literaturübersicht von Landfeldt et. al. ermittelte jährliche direkte medizinische Krankheitskosten pro Patient/in zwischen 3.320 \$ (SMA III, Italien) und 324.410 \$ (SMA I, USA) (Landfeldt et al., 2021). Zum Zeitpunkt der Antragstellung wurden alle am SMA-C+-Projekt beteiligten Patient*innen im selben Versorgungssetting behandelt (Therapie mit Nusinersen, stationär alle vier Monate für drei Tage). Während der Projektlaufzeit gab es zwei Neuzulassungen von Medikamenten. Aktuell gibt es drei unterschiedliche Medikamente, die teils eine ambulante, teils eine stationäre Versorgung erfordern. Im Fall von z.B. Onasemnogen-Abepravovec sind die Kinder einmalig eine Woche stationär, danach über ca. drei Monate alle 1-2 Wochen ambulant im Muskelzentrum und nachfolgend alle vier Monate ambulant. Diese Heterogenität machte Vergleiche zwischen Interventions- und Regelversorgungskosten im Rahmen dieses Projekts nicht möglich.

7. Diskussion der Projektergebnisse

7.1. Phase 1: Anpassung und psychometrische Prüfung des Pediatric Integrated Care Surveys (PICS)

In Phase 1 wurde der PICS-D-Fragebogen auf seine psychometrischen Eigenschaften untersucht. Der entwickelte Fragebogen ist ein zuverlässiges Instrument mit akzeptablen psychometrischen Eigenschaften, mit welchem die Erfahrungen von Eltern chronisch kranker Kinder hinsichtlich der Behandlungsintegration erfasst werden können. Er verwendet einen multidimensionalen Ansatz und umfasst essentielle Aspekte der Behandlungsintegration, die in drei Faktoren unterteilt werden können. Faktor 1 „Teamqualität & -kommunikation“ stellt die wahrgenommene Qualität der Versorgung und die Zusammenarbeit innerhalb des Versorgungsnetzes (= alle Personen, die in den letzten 12 Monaten zum Zeitpunkt der Erhebung an der Versorgung des Kindes beteiligt waren) dar, z.B. Austausch von Behandlungsempfehlungen, Erfüllung der mit der Versorgung verbundenen Aufgaben (Sterly & Hassler, 2012). Darüber hinaus analysiert Faktor 1 die Erfahrungen in Bezug auf die Kommunikation zwischen Fachkräften des Gesundheitswesens und Eltern und den Grad der elterlichen Beteiligung an Entscheidungen, die die Gesundheit des Kindes betreffen, z. B. das Gefühl, als vollwertige/r Partner*in behandelt zu werden (Noest et al., 2014; Singer et al., 2011). Faktor 2 „Auswirkungen auf die Familie“ bewertet den Einfluss von Behandlungsentscheidungen und Interventionen auf die gesamte Familie, z. B. Belastungen durch die Erkrankung des Kindes, Möglichkeiten zur Vernetzung mit anderen betroffenen Familien (Hjorth et al., 2019; Mastellos et al., 2014). Faktor 3 „Zugang zur Versorgung“ untersuchte Schlüsselemente des Zugangs zur Versorgung, z. B. Schwierigkeiten bei der Koordination von Terminen (Altman et al., 2018; Wolfe et al., 2016). Zur Auswertung des PICS-D können aufgrund der unzureichenden Reliabilität des dritten Faktors lediglich Faktor 1 und 2 herangezogen werden. Um die Aussagekraft des dritten Faktors zu erhöhen, wäre es notwendig, einen neuen zugehörigen Item-Pool zu entwickeln und diesen Faktor mittels Faktorenanalyse erneut zu untersuchen. Mehr als vier Items wären dabei wünschenswert, um

fundierte statistische Analysen durchführen zu können und eine hinreichende Inhaltsvalidität zu erreichen.

Das Projektteam hat die von den Analysen ausgeschlossenen Items sowohl auf methodischer als auch auf inhaltlicher Ebene überprüft. Die Thematik dieser ausgeschlossenen Items scheint durch den Inhalt der anderen Items der jeweiligen Faktoren gut abgedeckt zu sein. Eine mögliche Erklärung für das Missverstehen des Wortlauts der Items könnte in der Übersetzung liegen: Im Deutschen sind die Wortlaute tendenziell länger und verschachtelter, was möglicherweise verschiedene latente Konstrukte hervorruft. Die im PICS-D gefundene Faktorenstruktur scheint jedoch der Faktorenstruktur des ursprünglichen PICS thematisch ähnlich zu sein (mit Ausnahme der ausgeschlossenen Items), was auf eine angemessene Repräsentation der Itemwortlaute im PICS-D hindeuten könnte (Antonelli, 2015; Ziniel et al., 2016). Die Faktoren 2 und 3 bestehen aus identischen Items wie die Faktoren „Family Impact“ und „Access to care“ im ursprünglichen PICS. Faktor 1 ist eine Zusammensetzung aus den ursprünglichen Faktoren „Communication between HCP (Health Care Provider) and parent“ und „Team functioning/performance/quality/connectivity“.

Soweit uns bekannt ist, ist der PICS-D das erste und derzeit einzige deutsche Instrument, mit dem die Qualität der Behandlungsintegration durch die Eltern chronisch kranker Kinder bewertet werden kann. Das SMA-C+-Projekt hebt die Relevanz der Partizipation von Patient*innen und Familien bei der Gestaltung von adäquaten Versorgungsmodellen und bei der Bewertung dieser Modelle hervor (Bautista et al., 2016). Der PICS-D ist ein erster Schritt zur Evaluation möglicher Interventionen zur Adressierung der Behandlungsintegration mit dem Ziel der Verbesserung der Versorgung chronisch kranker Kinder und der stärkeren Einbindung der Familien in den Versorgungsprozess. Vor und nach der Datenerhebung wurden anspruchsvolle Verfahren angewandt, um die Übertragbarkeit des originalen PICS auf den deutschen Gesundheitskontext zu ermöglichen (umfassender Übersetzungsprozess; zwei Phasen kognitiver Interviews mit intermittierender und abschließender Überarbeitung des PICS-D; mehrere virtuelle Treffen mit den Originalautoren, um die ursprüngliche Bedeutung des Wortlauts der Items sicherzustellen; Kombination statistischer und inhaltlicher Überlegungen beim Ausschluss von Items usw.).

Die Beurteilung weiterer psychometrisch wichtiger Eigenschaften des Fragebogens (z.B. andere Facetten der Konstruktvalidität, Kriteriumsvalidität, Test-Retest-Reliabilität usw.) ist wünschenswert und erfordert weitere methodische Anstrengungen. Es ist daher zu empfehlen, die Struktur des Fragebogens mit bundesweit größeren Stichproben zu replizieren. Der ursprüngliche PICS wurde im Kontext des US-amerikanischen Gesundheitssystems entwickelt und stützt sich auf Interviews und Fokusgruppen mit Patient*innen und Gesundheitsdienstleistenden. Weitere psychometrische Tests in anderen Ländern sind erforderlich, um den theoretischen Rahmen der pädiatrischen Behandlungsintegration zu verfeinern, indem unterschiedliche Erfahrungen in internationalen Gesundheitskontexten berücksichtigt werden.

7.2. Phase 2: Multiperspektivische Ist-Analyse der Versorgungsqualität von Patient*innen mit SMA I und II

Mithilfe von semi-strukturierten Interviews und Betreuungstagebüchern wurde in Phase 2 untersucht, wie Eltern von Kindern mit SMA I und II und in die Behandlung involvierte Gesundheitsdienstleistende die Behandlungscoordination bewerteten und welche Aufgaben sie innerhalb der Versorgung der Patient*innen erfüllten.

Durch die semi-strukturierten Interviews konnten sieben Hauptcodes identifiziert werden, die gemäß der Befragten einen Einfluss auf die Behandlungscoordination hatten. Diese Codes ergaben sich sowohl auf der Grundlage früherer Studien zur Behandlungscoordination als

auch induktiv aus den Aussagen der befragten Teilnehmenden. Die gewählten Codes wirkten sich gemäß der Befragten in unterschiedlichem Maße auf die Behandlungscoordination aus. Während einige Codes in direktem Zusammenhang mit der Behandlungscoordination standen („Koordinationsstruktur“, „Informationsaustausch“, „Rollenverteilung in der Behandlungscoordination“ sowie „Qualität der Beziehung“), schienen Codes, wie „Krankheits- und Koordinationsmanagement der Eltern“, „Rahmenbedingungen der Versorgung“ sowie „Fachwissen und Fertigkeiten“, die Behandlungscoordination eher peripher zu beeinflussen.

Das elterliche „Krankheits- und Koordinationsmanagement“ konnte entweder Sicherheit oder Unsicherheit bei den zu verrichtenden Koordinationstätigkeiten vermitteln. Dieser Code stellt somit eine Art Basis dar, auf der die Eltern mit unterschiedlicher Effizienz einzelne Maßnahmen im Rahmen der Versorgung ihres Kindes koordinierten. Mit zunehmender Erfahrung in Bezug auf die Erkrankung und den Gesundheitszustand ihres Kindes fühlten sich die befragten Eltern sicherer in der Behandlungscoordination. Mit einem höheren Maß an eigenem „Fachwissen und Fertigkeiten“ konnten sie verschiedene Versorgungsoptionen steuern und einzelne Maßnahmen besser aufeinander abstimmen. Die Aufgabe der involvierten Gesundheitsdienstleistenden war in diesem Zusammenhang vor allem die Stärkung der Eltern in ihrem Versorgungsmanagement durch Entscheidungshilfen und kontinuierliche Begleitung.

Die Zusammensetzung des Versorgungsnetzes variierte je nach Wohnort der Familien und den verfügbaren Fachkenntnissen und Fertigkeiten der Fachkräfte. Fachkräfte, die über ein höheres Maß an „Fachwissen und Fertigkeiten“ in Bezug auf SMA verfügten, waren ein unterstützender Faktor hinsichtlich der Behandlungscoordination. Sie berieten die Familien bei der Auswahl von Versorgungsoptionen und halfen ihnen beim Auf- und Ausbau des Versorgungsnetzes. Im Allgemeinen erwies es sich jedoch als schwierig, geeignetes Fachpersonal mit ausreichend SMA-spezifischem Fachwissen zu finden. In städtischen Gebieten schien es diesbezüglich eine höhere Verfügbarkeit zu geben, was einen förderlichen Einfluss auf die Behandlungscoordination hatte, da Entfernungen zwischen Versorgungsinstitutionen kürzer waren und Termine zusammengelegt werden konnten. Für Patient*innen mit seltenen Krankheiten besteht eine zusätzliche Herausforderung darin, dass sie von einigen wenigen spezialisierten Anbietern abhängig sind, die sich hauptsächlich auf die biomedizinischen Aspekte von Forschung und Behandlung konzentrieren, aber nur wenig Informationen über die allgemeine Funktionsfähigkeit ihrer Patient*innen und die Teilnahme an verschiedenen Lebensbereichen haben. Daher empfanden befragte Eltern es als vorteilhaft, wenn das Fachwissen eines involvierten Gesundheitsdienstleistenden über das rein medizinische Wissen hinausgeht. Vielmehr ginge es darum, die Bedürfnisse der betroffenen Familien zu erkennen, um die gesundheitsbezogene Lebensqualität zu verbessern. Ein wichtiger Aspekt der Behandlungscoordination sind daher die Beziehungen zwischen den Akteur*innen im Versorgungsnetz (= alle Personen, die in den vergangenen 12 Monaten zum Zeitpunkt der Erhebung an der Versorgung des Kindes beteiligt waren), die sich insbesondere in den Codes „Informationsaustausch“, „Rollenverteilung in der Behandlungscoordination“ sowie „Qualität der Beziehung“ widerspiegeln. Die Codebildung unterstützende Theorie der relationalen Koordination bietet ein Rahmen für die Bewertung von Teamarbeit, der die Kommunikation und die Beziehungen in einem Team betont (Gittel, 2006; Van Houdt et al., 2013, 2014). Beide Aspekte sind voneinander abhängig und führen zu einem sich gegenseitig verstärkenden Prozess (Gittel, 2006): Die Akteur*innen im Versorgungsnetz benötigen einen rechtzeitigen, regelmäßigen und lösungsorientierten Informationsaustausch, um ihre Aufgaben innerhalb der Versorgung gut erfüllen zu können. Der Austausch von Informationen ist einfacher, wenn die Qualität der Beziehungen zwischen den Mitgliedern des Versorgungsnetzes gut ist. Eine gute Qualität der Beziehungen gewährleistet, dass sich alle Akteur*innen ihrer Rollen und den damit verbundenen Aufgaben bewusst sind. Demnach war die Behandlungscoordination gemäß der Befragten effektiver, wenn ein guter Informationsaustausch, eine klare Rollenverteilung und eine gute Qualität der

Beziehungen im Versorgungsnetz existierten. Ein weiterer wichtiger Aspekt war der Austausch zwischen betroffenen Eltern als ein wichtiges Bindeglied zwischen verschiedenen Versorgungsnetzen. So konnten sich die befragten Eltern über verschiedene Versorgungsoptionen und deren Güte austauschen, bekamen relevante Kontaktadressen und konnten die Versorgung des Kindes darauf basierend koordinieren.

Die Theorie der relationalen Koordination konzentriert sich jedoch hauptsächlich auf die Zusammenarbeit zwischen interprofessionellen Gesundheitsfachkräften. Eine Besonderheit in der Versorgung von Patient*innen mit SMA ist die Rolle der Eltern, die oft als Schnittstelle im Versorgungsnetz beschrieben wird. Trotz der Heterogenität in aufgewandter Zeit und aufgewandten Kosten konnten die Angaben in den Betreuungstagebüchern zeigen, dass die Eltern einen großen Anteil der Behandlungscoordination übernahmen. Dies ging einher mit den Aussagen im Rahmen der semi-strukturierten Interviews, in welchen befragte Eltern und Gesundheitsdienstleistende die Behandlungscoordination vor allem im elterlichen Verantwortungsbereich sahen. Es ist von entscheidender Bedeutung, dass die Eltern intensiv einbezogen werden, da sie Experten für den Krankheitsverlauf ihrer eigenen Kinder sind. Dieses Vorgehen war jedoch für einige, aber nicht für alle befragten Eltern angemessen. Ein großer Anteil der Befragten berichtete über einen Bedarf an Unterstützung oder Entlastung im Rahmen der Behandlungscoordination. Koordinationsmechanismen, die den Familien Unterstützung bieten, sind daher unerlässlich. Die Eltern berichteten über bereits bestehende Koordinationsmechanismen unterschiedlicher Qualität, welche zum Großteil in organisationsinterne Versorgungsstrukturen eingebettet waren und einen direkten, förderlichen Einfluss auf die Behandlungscoordination hatten. Die Ausgestaltung der einzelnen Mechanismen war sehr heterogen und variierte von Familie zu Familie in Abhängigkeit von der Qualität des Versorgungsnetzes. Gemäß der Befragten seien existierende Koordinationsmechanismen in der Versorgung von Kindern mit SMA jedoch eher rar vertreten. Aus den semi-strukturierten Interviews und den Betreuungstagebüchern geht hervor, dass sich die meisten Eltern zur besseren Koordination einen kontinuierlichen festen Ansprechpartner wünschten (z.B. zur Terminkoordination oder zur Kommunikation mit Behörden/Krankenkassen) sowie einen regelmäßigen Informationsfluss hinsichtlich potentieller Versorgungsoptionen und einen fachlichen Austausch innerhalb des Versorgungsnetzes hinsichtlich der Versorgung des Kindes befürworteten.

Eine Stärke dieser Projektteilphase ist, dass ausführliche Interviews mit Eltern in ganz Deutschland geführt wurden, um ihre Aktivitäten zur Behandlungscoordination im Kontext des alltäglichen Lebens zu verstehen. Durch die unterstützenden Ergebnisse aus den Interviews mit involvierten Gesundheitsdienstleistenden sowie die Ergänzung der Ergebnisse durch die zusätzlichen Angaben in den Betreuungstagebüchern wurde die Behandlungscoordination multimodal erfasst und bewertet. So konnten individuelle Koordinationsbedarfe abgefragt und thematisch eingeordnet werden, anders als dies mit dem Einsatz eines einzelnen standardisierten Instrumentes (z.B. Fragebogen) möglich gewesen wäre. Durch die Gestaltung des Interviewleitfadens, der wenig Struktur vorgab, konnten die Befragten ihre Perspektive angemessen darstellen und eigene Themen anbringen. Darüber hinaus konnte durch eine Kombination aus induktiver und deduktiver Codebildung sichergestellt werden, dass ein großer Anteil hinderlicher und förderlicher Faktoren im Hinblick auf die Behandlungscoordination abgedeckt wurde. Aufgrund der Korrelation untereinander sowie der Interdependenz ist eine trennscharfe Abgrenzung der extrahierten Codes jedoch schwierig. In der Literatur wurden einzelne Komponenten der Behandlungscoordination unterschiedlich benannt, obwohl sie im Kern das Gleiche bedeuteten. Trotz mehrfacher Überarbeitung des Codesystems durch unterschiedliche Projektbeteiligte konnten Aussagen der Befragten mehreren Codes zugeordnet werden. Dies zeigt die Komplexität der Behandlungscoordination bei seltenen Erkrankungen, die zudem auf viele verschiedene Arten erfolgen kann.

Mit den Ergebnissen aus Phase 2 des Projekts konnten Ansatzpunkte für effiziente Koordination identifiziert werden. Es konnte jedoch nicht abgeleitet werden, welche Form der Koordination am besten für Patient*innen mit SMA I und II sowie deren Versorgungsnetz geeignet ist. Dies scheint von mehreren Faktoren abhängig zu sein, wie z.B. dem Umfang des Koordinationsbedarfs, dem Zeitpunkt nach der Diagnosestellung und der damit verbundenen Erfahrung der betroffenen Eltern innerhalb der Behandlungscoordination. Im Allgemeinen ist die Versorgung von SMA-Patient*innen sehr individuell und dynamisch. Die Ergebnisse deuten darauf hin, dass bei seltenen, chronischen Erkrankungen ein individueller Koordinationsansatz benötigt wird, der in Abhängigkeit von der familiären Situation, der Verfügbarkeit und Beschaffenheit des Versorgungsnetzes sowie dem unterschiedlichen Wunsch nach Involvierung der Eltern zu wählen ist. Eine regelmäßige Erfassung der Bedürfnisse der Akteur*innen des Versorgungsnetzes (im Speziellen der betroffenen Familie), zentralisierte gemeinsame Versorgungspfade sowie die Schulung des Personals und die Befähigung der Familien zum Selbstmanagement sollten jedoch zentrale Bestandteile aller Koordinationsmodelle sein. Auf Basis der Ergebnisse von Phase 2 wurde die CM-Intervention entwickelt. Konkrete Merkmale des Case Managements finden sich in Abschnitt 4.1.ff.

7.3. Phase 3: Explorative, kontrollierte Studie zur Evaluation des Case Managements

In Phase 3 wurde eine SMA-spezifische CM-Intervention hinsichtlich ihrer Akzeptanz und Machbarkeit (Prozessevaluation), ausgewählter primärer und sekundärer Endpunkte (Ergebnisevaluation) sowie ihrer direkten und indirekten Kosten (gesundheitsökonomische Evaluation) untersucht. Primäre Endpunkte waren die Auswirkung des CM auf die Behandlungsintegration innerhalb des Versorgungsnetzwerks von Kindern mit SMA I und II sowie auf die GLQ betroffener Eltern und Kinder. Das CM wurde so konzipiert, dass es die aktuelle Versorgungssituation mit den Familien bewertete, individuelle Bedürfnisse und Bedarfe identifizierte und notwendige Informationen bereitstellte. Daher führten die Case Managerinnen regelmäßige, strukturierte Gespräche mit den Familien über die Gesamtversorgung, wobei der Fokus auf der Unterstützung der Familien hinsichtlich der Behandlungsintegration lag. Es wurden zu drei Messzeitpunkten (T0-T2) semi-strukturierte Interviews geführt und Fragebögen verteilt, um die in Abschnitt 6.3.ff. dargestellten Endpunkte in IG und KG zu erfassen. Die Eltern der IG beschrieben, dass sie das CM für die Terminkoordination (insbesondere innerhalb des Muskelzentrums), für organisatorische Unterstützung (z. B. bei Hilfsmitteln oder Rezepten) und als Informationsquelle nutzten. Außerdem unterstützte es bei der Vermittlung von Kontakten und der Kommunikation mit Fachkräften. Darüber hinaus hatte das CM eine Begleitfunktion, indem die Eltern mit der Case Managerin regelmäßig den Versorgungsstatus des Kindes sowie das Wohl und die Bedürfnisse der gesamten Familie besprachen. Die Eltern legten die Häufigkeit und die Art des Kontakts gemeinsam mit der Case Managerin individuell fest.

Das CM schien teilweise Einfluss auf die von den Eltern angegebene Behandlungsintegration zu haben. Obwohl die Effektgröße der PICS-D-Skala „Teamqualität & -kommunikation“ innerhalb des angestrebten Bereichs lag, zeigt Abbildung 6, dass die Teilnehmenden der IG im Vergleich zu den Teilnehmenden der KG über alle Messzeitpunkte hinweg (selbst zum Zeitpunkt T0 als Beginn der Intervention) eine bessere Zusammenarbeit im Versorgungsnetzwerk berichteten. Dies lässt vermuten, dass ein höheres Maß an Behandlungsintegration in der IG eher ein möglicher Effekt des unterschiedlichen Versorgungskontextes sein könnte, da die Teilnehmenden entsprechend ihrer Zugehörigkeit zum jeweiligen Muskelzentrum (IG = Muskelzentrum in Freiburg; KG = Muskelzentrum in Tübingen/Essen) den Gruppen zugewiesen wurden. In den Interviews bestätigte ein großer Anteil der Eltern in der IG diese Vermutung. Sie berichteten, dass die Reichweite des CM zu gering gewesen sei und sich nicht auf das restliche Versorgungsnetz ausgewirkt habe. Der

Wirkungsbereich sei vor allem auf die Strukturen innerhalb des Muskelzentrums im Raum Freiburg begrenzt gewesen (z.B. Absprachen mit anderen Abteilungen der Universitätsklinik). Familien, deren Versorgungsnetzwerk weiter entfernt war, berichteten, dass das CM den Informationsaustausch zwischen Gesundheitsdienstleistenden innerhalb und außerhalb des Muskelzentrums nicht unterstützte. Darüber hinaus beschrieben einige Eltern der IG, dass ihr Versorgungsnetzwerk bereits gut etabliert war und/oder sie bereits Kontaktpersonen in anderen Einrichtungen hatten. Sie berichteten, dass das CM daher wenig Einfluss auf diese gefestigten Strukturen hatte.

Nichtsdestotrotz schien das CM einen wichtigen Teilbereich der Behandlungsintegration zu beeinflussen. Der Großteil der Eltern der IG berichtete, dass die Existenz einer kontinuierlichen Anlaufstelle zu einer besseren Behandlungscoordination führte. Den Rückmeldungen in den Interviews zufolge verringerte das CM die Belastung aufseiten der teilnehmenden Familien, indem die Case Managerin Termine koordinierte und bürokratische Aufgaben übernahm (z. B. die Kommunikation mit Krankenkassen und Behörden). Im Vergleich dazu beschrieben die Teilnehmenden der KG über viele einzelne Anlaufstellen, die sie individuell adressieren mussten. Ein kleiner Anteil der Eltern in der KG berichtete zudem über eher informelle und unstrukturierte Unterstützungsmodelle im Rahmen der Behandlungscoordination in Abhängigkeit vom Engagement in den jeweiligen Versorgungsnetzen durch freiwillige Übernahme von Koordinationsaufgaben durch beteiligte Akteur*innen.

Das CM sorgte gemäß der Rückmeldungen für eine systematischere Versorgung, insbesondere in Zeiten von Zulassungen neuer Medikamente und Veränderungen in der Regelmäßigkeit der stationären Aufenthalte zu T2. Die Case Managerinnen kombinierten Termine effizient, während Teilnehmende der KG von Einzelterminen berichteten, die mehrere Anreisen zum Muskelzentrum erforderten. Darüber hinaus schien das CM in der Lage zu sein, die durch eine mögliche Umstellung auf ein neues Medikament verursachte Unsicherheit abzufedern und die Eltern in ihrem Versorgungsmanagement hinsichtlich neuer Herausforderungen zu stärken. Die in den Interviews rückgemeldete Entlastung durch die Übernahme von Aufgaben durch die Case Managerinnen spiegelt sich jedoch (noch?) nicht in den quantitativen Ergebnissen wider. Teilnehmende der IG haben relativ konstante Werte auf den Stress- bzw. Belastungsskalen (PICS-D-Skala „Auswirkungen auf die Familie“, FaBel Gesamtwert). Hier könnten weitere Faktoren eine Rolle spielen, z.B. die Persönlichkeit der befragten Eltern (Fühle ich mich belastet/entlastet?); die Bereitschaft, Aufgaben abzugeben sowie die Versorgungssituation des Kindes (Gibt es etwas, wovon ich gerade entlastet werden kann oder gibt es mögliche Aufgaben, die ich delegieren kann?).

Die GLQ der Eltern und Kinder schien durch das CM nur geringfügig beeinflusst. Die Effektgrößen für die SF-12- und die PedsQL-Skalen liegen im unteren Bereich. Die Abbildungen 9-11 zeigen zudem keine deutlichen Unterschiede zwischen den Mittelwerten von KG und IG über alle Messzeitpunkte hinweg. Möglicherweise ist ein 12-monatiger Beobachtungszeitraum zu kurz, um Effekte des CM auf die GLQ festzustellen. Die Eltern könnten Effekte auf die Behandlungsintegration (z.B. bessere Behandlungscoordination durch effizientere Terminkoordination) schneller bemerkt haben, da diese direkt mit ihrem alltäglichen Versorgungsmanagement verbunden sind. Die GLQ ist ein dynamisches Konstrukt, das dem Einfluss vieler externer Faktoren unterliegt (Güthlin, 2004). Teilnehmende beider Gruppen gaben in den Interviews Auskunft über Faktoren, die ihre GLQ während der Erhebungsphase potentiell beeinflusst haben könnten: Durch COVID-19 gab es einen großen Einschnitt in den Lebensalltag von Familien mit Kindern, die an chronisch komplexen Erkrankungen leiden. Darüber hinaus gab es gravierende Veränderungen in der Versorgungsdynamik von SMA aufgrund der Zulassung neuer Medikamente. Dies brachte neue Herausforderungen, Unsicherheiten und Veränderungen in der Versorgungsstruktur mit sich. In Abbildung 10 ist ein Rückgang der Mittelwerte beider Gruppen auf der SF-12-Skala „Psychische Gesundheit“ zu T2 zu beobachten. Ein geringerer Rückgang in der IG könnte in Zusammenhang mit den elterlichen Interviewaussagen hinsichtlich der CM-seitigen

Unterstützung bei der Unsicherheit bezüglich der Umstellung auf ein neues Medikament stehen. Auch wenn die CM-Intervention gemäß quantitativer Ergebnissen kaum Auswirkungen auf die GLQ hatte, ermöglichen die Ergebnisse der Prozessevaluation potentiell einen Ausblick. Die Teilnehmenden der IG berichteten, dass das CM ein Gefühl von Sicherheit und Kontinuität vermittelte, auch wenn sie es nicht häufig in Anspruch nahmen. Zusätzlich könnte die in den Interviews rückgemeldete Entlastung durch Abnahme von Koordinationstätigkeiten bei langfristiger Implementierung des CM einen positiven Einfluss auf die GLQ haben. Hinsichtlich des Einflusses auf die GLQ von Patient*innen empfehlen wir jedoch zusätzlich die Verwendung eines besser geeigneten Fragebogens zur Abbildung. Der PedsQL schien aufgrund einiger Items unzureichend inklusiv zu sein.

Die gesundheitsökonomische Evaluation lässt aufgrund der fehlenden Kosten der Regelversorgung nur einen Vergleich von informellen Kosten und Interventionskosten zu. Die durchschnittlichen Interventionskosten pro Stunde (28,49 €) übersteigen die in Phase 2 ermittelten, durchschnittlichen elterlichen informellen Kosten pro Stunde (20,20 €). Betrachtet man jedoch den durchschnittlichen Zeitaufwand und die damit verbundenen durchschnittlichen Gesamtkosten pro Jahr unabhängig vom Stundenlohn und vergleicht dabei den elterlichen Aufwand mit der Intervention, fällt auf, dass die Eltern erheblich mehr Zeit und damit verbunden auch mehr (informelle) Kosten aufwenden mussten. Hinzu kommt, dass in die aufgewandte Zeit der Case Managerinnen der Familienkontakt und die regelmäßig durchgeführten Assessments einfließen. Diese zusätzlich aufgewandte Zeit ist in den Koordinationstätigkeiten der Eltern nicht enthalten, da diese einen direkteren Zugang zu den familiären Bedarfen und dem Gesundheitszustand des Kindes hatten. Würde man in Tabelle 17 lediglich die durchschnittlich aufgewandte Zeit und die durchschnittlich aufgewandten Kosten für „Interne Organisation“ betrachten (was den elterlich geleisteten Koordinationstätigkeiten gleichkäme), käme man auf 1,15 Std. und 32,80 € pro 12 Monate. Dies lässt den Unterschied zum elterlichen Aufwand noch größer erscheinen. Hinzukommend besaßen beide Case Managerinnen zertifizierte Ausbildungen und waren informiert über relevante Kontakte und Prozesse, was sie dazu befähigte die erforderlichen Koordinationstätigkeiten effizient und lösungsorientiert zu verrichten. In allen semi-strukturierten Interviews berichteten die Eltern über ein „Hineinwachsen“ in die Expertenrolle nach der Diagnosestellung. Aus diesem Grund erscheint es logisch, dass die Eltern mehr Zeit und damit verbunden Kosten aufwenden mussten, um den gleichen Aufgaben nachzukommen und gerechtfertigt, dass die Case Managerinnen aufgrund der passenden Ausbildung einen höheren Stundenlohn erhielten. Angesichts dieser Tatsache erscheint eine Implementierung der CM-Intervention als lohnenswert, um die Eltern in ihrem Versorgungsmanagement zu entlasten. Um herauszufinden, ob die informellen Kosten der Eltern im Rahmen eines erfolgreichen CM sinken, könnte man das Betreuungstagebuch als regelmäßiges Assessment in das CM integrieren (z.B. 1x pro Jahr).

Nach Kenntnis des Projektteams ist dies die erste Studie, die ein patientenzentriertes und individualisiertes Koordinationsmodell im Kontext von SMA entwickelt und evaluiert hat. Zur Bewertung der CM-Intervention kamen sowohl qualitative als auch quantitative Methoden ein. So konnten individuelle Wahrnehmungen abgebildet und das CM in seiner Heterogenität erfasst sowie gemeinsame Komponenten herausgearbeitet werden, die für ein solches Versorgungsmodell essentiell sind. Darüber hinaus wurden im Rahmen der Prozessevaluation Verbesserungsvorschläge für das CM erfragt und damit eine Grundlage für die Gestaltung zukünftiger Versorgungsmodelle geschaffen, die auch auf andere pädiatrische chronische Erkrankungen zugeschnitten werden können. Im Rahmen dieser Pilotevaluation sind jedoch einige Aspekte einschränkend und bedürfen zukünftiger Forschung. Aufgrund der Seltenheit der Erkrankung konnten trotz intensiver Rekrutierungsstrategie und der Unterstützung durch die Kooperationspartner nur 32 Teilnehmende rekrutiert werden. Diese Stichprobe ist zu klein, um Gruppenunterschiede in den quantitativen Ergebnissen gemäß den von uns angestrebten Effektgrößen zu erkennen. Wie bereits erwähnt, wurden die Teilnehmenden

nach ihrer Zugehörigkeit zu den Muskelzentren in IG und KG aufgeteilt. Nicht nur ein Unterschied in der Gruppengröße, sondern auch die bereits vermuteten Unterschiede innerhalb der Versorgungskontexte könnten sich auf die Ergebnisse ausgewirkt haben. Die Eltern beider Gruppen berichteten in den Interviews von einer heterogenen Versorgung, abhängig vom Muskelzentrum, dem Wohnort der Familie etc. Auch wenn die angestrebten Effektgrößen nicht erreicht wurden, fällt auf, dass die Mittelwerte der IG für alle quantitativen Endpunkte „besser“ sind als die Mittelwerte der KG. Außerdem unterstützte vor der Einführung der CM-Intervention eine Studienassistentin die Eltern der IG in einigen Aspekten des Versorgungsmanagements (z. B. Terminkoordination im Muskelzentrum). Daher schien es schwierig, einen allgemeinen Versorgungsstandard zu definieren und mit neuen Modellen der Behandlungscoordination zu vergleichen. Die genannten Gründe könnten zu einer möglichen Unterschätzung der CM-Effekte führen. Im Rahmen dieser Evaluation wird empfohlen, die qualitativen Ergebnisse zu fokussieren, da diese die heterogene Bewertung des CM nach Einschätzung des Projektteams besser repräsentieren. Des Weiteren könnte das Evaluationsintervall zu kurz gewesen sein, um die CM-Intervention zu etablieren, da die Teilnehmenden über die Messzeitpunkte hinweg nur geringe Veränderungen im CM berichteten. In den Interviews erhielten wir Rückmeldungen, dass das CM zu abstrakt, theoretisch und schwer in das eigene Versorgungsmanagement zu integrieren sei. In den T0/T1-Interviews gab es zudem anfängliche Unklarheiten aufseiten der teilnehmenden Eltern, für was das CM „genutzt werden kann/darf“ und die Rückmeldung, dass sich vieles „erst einspielen muss“. Da die CM-Intervention im Rahmen des Projekts erst entwickelt wurde, wird davon ausgegangen, dass dies möglicherweise ein „Start-up-Effekt“ ist, der ausgeglichen werden könnte, wenn das CM über einen längeren Zeitraum evaluiert würde. Für einen verbindlichen Vergleich auf Gesamtkostenebene müssten außerdem zusätzlich zu den informellen (v.a. nicht-medizinischen) Kosten die direkten Krankheitskosten berücksichtigt werden, was im Rahmen des SMA-C+-Projekts nicht geleistet werden konnte (s. Abschnitt 6.3.6.).

Diese Studie hat wichtige Informationen über die Entwicklung eines CM aus der Sicht der Eltern von Kindern mit SMA I und II geliefert. Es konnte festgestellt werden, dass ein Koordinationsmodell zentrale Komponenten benötigt, z.B. strukturierte Assessments der Versorgungssituation und des Bedarfs/der Bedürfnisse der Familie, Terminkoordination und Diskussion von Versorgungsoptionen. Dennoch ist es auch ein individueller „Vertrag“ zwischen Familien und Case Manager*innen, um eine individualisierte Versorgung zu gewährleisten. Das im Rahmen des Projekts entwickelte CM war nicht für alle Familien gleichermaßen hilfreich. Viele der teilnehmenden Eltern waren sehr routiniert in ihrem Versorgungsmanagement und daher nicht bereit oder in der Lage, bestimmte Aufgaben zu delegieren. Dennoch befürworteten ausnahmslos alle befragten Familien die Existenz eines solchen Versorgungsmodells. Sie berichteten, dass sie das CM zu einem früheren Zeitpunkt als (noch) hilfreicher einschätzen würden. Wir empfehlen daher eine CM-Intervention unmittelbar nach Diagnosestellung.

Künftige multizentrische Studien mit CM-Interventionen an verschiedenen Versorgungsstandorten sind erforderlich, um mehr Familien zu erreichen und bundesweit eine breitere Versorgung abzubilden. Zusätzlich sollten die Perspektiven anderer an der Behandlungscoordination beteiligter Akteur*innen (z. B. Gesundheitsdienstleistend) einbezogen werden, um das CM auf die Versorgungsnetze der Patient*innen auszuweiten und den Einfluss des CM auf die Gesamtversorgung zu erhöhen. Darüber hinaus sollten die CM-Elemente entsprechend den in der Prozessevaluation ermittelten Wünschen angepasst werden, um das Versorgungsmodell noch intensiver auf die Bedürfnisse der Familien zuzuschneiden.

Da Familien chronisch kranker Kinder mit ähnlichen Anforderungen und Belastungen konfrontiert sind, bietet dieses Projekt eine Grundlage für die Entwicklung weiterer CM-

Interventionen, die auf pädiatrisch chronische Erkrankungen zugeschnitten und in die Regelversorgung implementiert werden können.

8. Verwendung der Ergebnisse nach Ende der Förderung

Die Ergebnisse des Projekts finden auf drei Ebenen eine weitere Verwendung.

Fortsetzung des CM zur Versorgung von Patient*innen und ihrer Familien an der Klinik für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen des Uniklinikums Freiburg: Während der zweijährigen Projektlaufzeit hat sich das CM etabliert, so dass die Klinikdirektion entschieden hat, das Angebot fortzusetzen und weiterzuentwickeln. Die positiven Rückmeldungen von Seiten der Familien und der Mitarbeitenden gaben dafür den Ausschlag. Die Finanzierung erfolgt aus dem Klinik-Etat. Neben der Implementierung des CM als neue Dienstleistung hat die Durchführung des Projekts die interdisziplinäre Zusammenarbeit in der Abteilung insgesamt gestärkt. Beispielsweise wurden im Rahmen der CM-Einführung monatliche Konferenzen etabliert, in denen alle zu behandelnden SMA-Patient*innen interdisziplinär besprochen werden. Auf diese Weise konnte der Austausch zwischen den beteiligten Berufsgruppen, wie z.B. Psychologie und Neuropädiatrie gestärkt und verbessert werden.

Entwicklung eines Patient*innen-Beirats für die Versorgungsforschung: Die positiven Erfahrungen der Projektgruppe bzgl. der Einbeziehung der Betroffenen in den Forschungsprozess im Rahmen der Projektsymposien hat dazu geführt, dass inzwischen ein Patient*innenbeirat für die AG-Versorgungsforschung der Klinik entwickelt wurde (Langer et al., 2022). Damit soll die Beteiligung von Betroffenen strukturell im Forschungsprozess verankert werden, um eine möglichst relevante und patientenorientierte Forschung zu gewährleisten.

Folgeprojekte zum Thema Case Management und integrierte Versorgung: Aufgrund der inhaltlichen und methodischen Erfahrungen, die im Rahmen des Projekts gesammelt werden konnten, ergaben sich bereits Anschlussprojekte mit ähnlicher Ausrichtung. Beispielsweise führt die AG Versorgungsforschung der Klinik für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen die Evaluation des „Patientenlotsenprojekts der Deutschen Gesellschaft für Muskelkranke (DGM)“ durch. Die DGM ermöglicht darin fünf neuromuskulären Zentren in Deutschland den Einsatz einer Patientenlotsin, um die multidisziplinäre Versorgung zu unterstützen. Die unabhängige Evaluation führt die Freiburger Gruppe durch. Weitere Projekte, wie beispielsweise die Durchführung eines systematischen Reviews zur Wirksamkeit von „Integrated-Care-Interventionen“ im Kindes- und Jugendalter befinden sich in der Antrags- und Planungsphase.

Vor einer Überführung des in diesem Projekt evaluierten Case Managements in die Regelversorgung sind allerdings weitere Studien notwendig. Neben einer differenzierten Festlegung der Dienstleistung mit entsprechenden Weiterbildungscurriculum für die Mitarbeiter*innen erscheint es wichtig, die Kontextfaktoren der Organisationen vergleichend zu untersuchen, die mit einem CM arbeiten. Der Erfolg des CM in Freiburg hat sicher damit zu tun, dass es auf bestehenden Strukturen und Abläufen aufbauen konnte. Hier bestehen aus Sicht der Autor*innen interessante Möglichkeiten für Anschlussprojekte.

9. Erfolgte bzw. geplante Veröffentlichungen

<p><i>“Evaluation of a Case Management to Support Families With Children Diagnosed With Spinal Muscular Atrophy—Protocol of a Controlled Mixed-Methods Study”</i></p>	<p>Veröffentlichung am 03. August 2021 in Frontiers in Pediatrics; https://doi.org/10.3389/fped.2021.614512</p>
---	---

"The German Pediatric Integrated Care Survey (PICS-D): translation, adaptation, and psychometric testing"	Veröffentlichung am 23. Dezember 2022 in <i>Frontiers in Pediatrics</i> ; https://doi.org/10.3389/fped.2022.1057256
"Barriers and facilitating factors of care coordination in children with spinal muscular atrophy type I and II from the caregivers' perspective"	1. Einreichung am 29. September 2022 bei Orphanet Journal of Rare Diseases
"Evaluation of a Case Management for caregivers of children with spinal muscular atrophy type I and II – a mixed methods study"	1. Einreichung geplant für Frühjahr 2023

10. Literaturverzeichnis

- Altman, L., Zurynski, Y., Breen, C., Hoffmann, T., & Woolfenden, S. (2018). A qualitative study of health care providers' perceptions and experiences of working together to care for children with medical complexity (CMC). *BMC Health Services Research*, *18*(1), 70. <https://doi.org/10.1186/s12913-018-2857-8>
- Al-Zaidy, S., Pickard, A. S., Kotha, K., Alfano, L. N., Lowes, L., Paul, G., Church, K., Lehman, K., Sproule, D. M., Dabbous, O., Maru, B., Berry, K., Arnold, W. D., Kissel, J. T., Mendell, J. R., & Shell, R. (2019). Health outcomes in spinal muscular atrophy type 1 following AVXS-101 gene replacement therapy. *Pediatric Pulmonology*, *54*(2), 179–185. <https://doi.org/10.1002/ppul.24203>
- Antonelli, R. (2015). *Pediatric Integrated Care Survey 1.0 User Manual* [User Manual]. Boston Children's Hospital.
- Arbeitgeberverband der Universitätsklinik e.V. (2021). *Entgelt- & Pflgetabelle ab 1. Februar 2021*. <http://www.agu-uniklinika.de/>
- Baranello, G., Darras, B. T., Day, J. W., Deconinck, N., Klein, A., Masson, R., Mercuri, E., Rose, K., El-Khairi, M., Gerber, M., Gorni, K., Khwaja, O., Kletzl, H., Scalco, R. S., Seabrook, T., Fontoura, P., Servais, L., & FIREFISH Working Group. (2021). Risdiplam in Type 1 Spinal Muscular Atrophy. *The New England Journal of Medicine*, *384*(10), 915–923. <https://doi.org/10.1056/NEJMoa2009965>
- Bates, D., Mächler, M., Bolker, B., & Walker, S. (2015). Fitting Linear Mixed-Effects Models Using lme4. *Journal of Statistical Software*, *67*, 1–48. <https://doi.org/10.18637/jss.v067.i01>
- Bautista, M. A. C., Nurjono, M., Lim, Y. W., Dessers, E., & Vrijhoef, H. J. (2016). Instruments Measuring Integrated Care: A Systematic Review of Measurement Properties. *The Milbank Quarterly*, *94*(4), 862–917. <https://doi.org/10.1111/1468-0009.12233>
- Beernaert, K., Lövgren, M., Jeppesen, J., Werlauff, U., Rahbek, J., Sejersen, T., & Kreichbergs, U. (2019). Parents' Experiences of Information and Decision Making in the Care of Their Child With Severe Spinal Muscular Atrophy: A Population Survey. *Journal of Child Neurology*, *883073818822900*. <https://doi.org/10.1177/0883073818822900>
- Borell, S., Pechmann, A., & Kirschner, J. (2015). Spinale Muskelatrophie. *Monatsschrift Kinderheilkunde*, *163*(12), 1293–1304. <https://doi.org/10.1007/s00112-015-0004-8>
- Brandt, M., Johannsen, L., Inhestern, L., & Bergelt, C. (2022). Parents as informal caregivers of children and adolescents with spinal muscular atrophy: A systematic review of quantitative and qualitative data on the psychosocial situation, caregiver burden, and

- family needs. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 17(1), 274. <https://doi.org/10.1186/s13023-022-02407-5>
- Chan, K. S., Mangione-Smith, R., Burwinkle, T. M., Rosen, M., & Varni, J. W. (2005). The PedsQL: Reliability and validity of the short-form generic core scales and Asthma Module. *Medical Care*, 43(3), 256–265. <https://doi.org/10.1097/00005650-200503000-00008>
- Dabbous, O., Maru, B., Jansen, J. P., Lorenzi, M., Cloutier, M., Guérin, A., Pivneva, I., Wu, E. Q., Arjunji, R., Feltner, D., & Sproule, D. M. (2019). Survival, Motor Function, and Motor Milestones: Comparison of AVXS-101 Relative to Nusinersen for the Treatment of Infants with Spinal Muscular Atrophy Type 1. *Advances in Therapy*, 36(5), 1164–1176. <https://doi.org/10.1007/s12325-019-00923-8>
- Dhillon, S. (2020). Risdiplam: First Approval. *Drugs*, 80(17), 1853–1858. <https://doi.org/10.1007/s40265-020-01410-z>
- Drixler, K., Morfeld, M., Glaesmer, H., Brähler, E., & Wirtz, M. (2020). Validierung der Messung gesundheitsbezogener Lebensqualität mittels des Short-Form-Health-Survey-12 (SF-12 Version 2.0) in einer deutschen Normstichprobe. *Zeitschrift für Psychosomatische Medizin und Psychotherapie*, 66. <https://doi.org/10.13109/zptm.2020.66.3.272>
- Eremenco, S. L., Cella, D., & Arnold, B. J. (2005). A comprehensive method for the translation and cross-cultural validation of health status questionnaires. *Evaluation & the Health Professions*, 28(2), 212–232. <https://doi.org/10.1177/0163278705275342>
- Fine, A., & Hampton, P. (2019). *Promoting Children's Long Term Health and Functioning | Applying a Life Course Approach to Pediatric Care for Children with Special Health Care Needs*. Lucile Packard Foundation for Children's Health. <https://www.lpfch.org/cshcn/grant/promoting-childrens-long-term-health-and-functioning>
- Finkel, R. S., Mercuri, E., Darras, B. T., Connolly, A. M., Kuntz, N. L., Kirschner, J., Chiriboga, C. A., Saito, K., Servais, L., Tizzano, E., Topaloglu, H., Tulinius, M., Montes, J., Glanzman, A. M., Bishop, K., Zhong, Z. J., Gheuens, S., Bennett, C. F., Schneider, E., ... ENDEAR Study Group. (2017). Nusinersen versus Sham Control in Infantile-Onset Spinal Muscular Atrophy. *The New England Journal of Medicine*, 377(18), 1723–1732. <https://doi.org/10.1056/NEJMoa1702752>
- Finkel, R. S., Mercuri, E., Meyer, O. H., Simonds, A. K., Schroth, M. K., Graham, R. J., Kirschner, J., Iannaccone, S. T., Crawford, T. O., Woods, S., Muntoni, F., Wirth, B., Montes, J., Main, M., Mazzone, E. S., Vitale, M., Snyder, B., Quijano-Roy, S., Bertini, E., ... SMA Care group. (2018). Diagnosis and management of spinal muscular atrophy: Part 2: Pulmonary and acute care; medications, supplements and immunizations; other organ systems; and ethics. *Neuromuscular Disorders: NMD*, 28(3), 197–207. <https://doi.org/10.1016/j.nmd.2017.11.004>
- Gittell, J. (2006). Relational coordination: Coordinating work through relationships of shared goals, shared knowledge and mutual respect. *Relational Perspectives in Organizational Studies: A Research Companion*, 74–94.
- Gordils-Perez, J., Schneider, S. M., Gabel, M., & Trotter, K. J. (2017). Oncology Nurse Navigation: Development and Implementation of a Program at a Comprehensive Cancer Center. *Clinical Journal of Oncology Nursing*, 21(5), 581–588. <https://doi.org/10.1188/17.CJON.581-588>
- Groen, E. J. N., Talbot, K., & Gillingwater, T. H. (2018). Advances in therapy for spinal muscular atrophy: Promises and challenges. *Nature Reviews. Neurology*, 14(4), 214–224. <https://doi.org/10.1038/nrneuro.2018.4>

- Güthlin, C. (2004). Response Shift: Alte Probleme der Veränderungs- und Reaktionsmessung, neu angewendet auf gesundheitsbezogene Lebensqualität. *Zeitschrift Für Medizinische Psychologie*, 13(4), 165–174.
- Haggerty, J. L., Reid, R. J., Freeman, G. K., Starfield, B. H., Adair, C. E., & McKendry, R. (2003). Continuity of care: A multidisciplinary review. *BMJ : British Medical Journal*, 327(7425), 1219–1221.
- Hattie, J., & Cooksey, R. W. (1984). Procedures for Assessing the Validities of Tests Using the „Known-Groups“ Method. *Applied Psychological Measurement*, 8(3), 295–305. <https://doi.org/10.1177/014662168400800306>
- Helfferich, C. (2019). Leitfaden- und Experteninterviews. In N. Baur & J. Blasius (Hrsg.), *Handbuch Methoden der empirischen Sozialforschung* (S. 669–686). Springer Fachmedien. https://doi.org/10.1007/978-3-658-21308-4_44
- Hjorth, E., Kreichbergs, U., Sejersen, T., Jeppesen, J., Werlauff, U., Rahbek, J., & Lövgren, M. (2019). Bereaved Parents More Satisfied With the Care Given to Their Child With Severe Spinal Muscular Atrophy Than Nonbereaved. *Journal of Child Neurology*, 34(2), 104–112. <https://doi.org/10.1177/0883073818811544>
- Hjorth, E., Kreichbergs, U., Sejersen, T., & Lövgren, M. (2018). Parents' advice to healthcare professionals working with children who have spinal muscular atrophy. *Eur J Paediatr Neurol.*, 22(1), 128–134. <https://doi.org/10.1016/j.ejpn.2017.10.008>
- Hooper, D., Coughlan, J., & Mullen, M. (2008). Structural Equation Modelling: Guidelines for Determining Model Fit. *Articles*. <https://doi.org/10.21427/D7CF7R>
- Hox, J. J., Moerbeek, M., & Schoot, R. van de. (2017). *Multilevel Analysis: Techniques and Applications* (3. Aufl.). Routledge. <https://doi.org/10.4324/9781315650982>
- Hu, L., & Bentler, P. M. (1999). Cutoff criteria for fit indexes in covariance structure analysis: Conventional criteria versus new alternatives. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, 6(1), 1–55. <https://doi.org/10.1080/10705519909540118>
- Kolb, S. J., & Kissel, J. T. (2015). Spinal Muscular Atrophy. *Neurologic Clinics*, 33(4), 831–846. <https://doi.org/10.1016/j.ncl.2015.07.004>
- König, M., Bachmann, A., & Hoppler, J. (2021). *Das multifaktorielle Modell zur Früherkennung und Frühintervention F+F. Bericht und Glossar* (Infodrog).
- Krauth, C., Hessel, F., Hansmeier, T., Wasem, J., Seitz, R., & Schweikert, B. (2005). [Empirical standard costs for health economic evaluation in Germany—A proposal by the working group methods in health economic evaluation]. *Gesundheitswesen (Bundesverband Der Ärzte Des Öffentlichen Gesundheitsdienstes (Germany))*, 67(10), 736–746. <https://doi.org/10.1055/s-2005-858698>
- Kuckartz, U. (2018). *Qualitative Inhaltsanalyse. Methoden, Praxis, Computerunterstützung* (4., überarbeitete Edition). Beltz Juventa.
- Kuo, D. Z., McAllister, J. W., Rossignol, L., Turchi, R. M., & Stille, C. J. (2018). Care Coordination for Children With Medical Complexity: Whose Care Is It, Anyway? *Pediatrics*, 141(Suppl 3), S224–S232. <https://doi.org/10.1542/peds.2017-1284G>
- Kuznetsova, A., Brockhoff, P. B., & Christensen, R. H. B. (2017). ImerTest Package: Tests in Linear Mixed Effects Models. *Journal of Statistical Software*, 82, 1–26. <https://doi.org/10.18637/jss.v082.i13>
- Landesamt für Besoldung und Versorgung Baden-Württemberg. (2021). *Tabellenentgelt 2021*. <https://lbv.landbw.de/-/tabellenentgelt-ab-01-01-2017-neu>

- Landfeldt, E., Pechmann, A., McMillan, H. J., Lochmüller, H., & Sejersen, T. (2021). Costs of Illness of Spinal Muscular Atrophy: A Systematic Review. *Applied Health Economics and Health Policy*, 19(4), 501–520. <https://doi.org/10.1007/s40258-020-00624-2>
- Langer, T., Gusset, N., Pechmann, A., Stumpe, E., Dürr, S., Mund, A., Matilainen, J., Meyer, S., Barth, M., & Haddad, A. (2022). Patientenpartizipation in der pädiatrischen Versorgungsforschung am Universitätsklinikum Freiburg: Von der Projektbeteiligung zum Patientenbeirat. *Zeitschrift Fur Evidenz, Fortbildung Und Qualitat Im Gesundheitswesen*, 173, 98–105. <https://doi.org/10.1016/j.zefq.2022.07.002>
- Löcherbach, P. (2010). *Effektivität und Effizienz von Case Management sind belegt*. 27ff.
- Mayring, P. (2022). *Qualitative Inhaltsanalyse Grundlagen und Techniken* (13.). Beltz Pädagogik. <https://www.beltz.de/fachmedien/paedagogik/produkte/details/48632-qualitative-inhaltsanalyse.html>
- McDonald, K., Schultz, E., Pineda, N., Lonhart, J., Chapman, T., & Davies, S. (2012). *Care Coordination Accountability Measures for Primary Care Practice*. 12-0019-EF. www.ahrq.hhs.gov
- Mendell, J. R., Al-Zaidy, S., Shell, R., Arnold, W. D., Rodino-Klapac, L. R., Prior, T. W., Lowes, L., Alfano, L., Berry, K., Church, K., Kissel, J. T., Nagendran, S., L'Italien, J., Sproule, D. M., Wells, C., Cardenas, J. A., Heitzer, M. D., Kaspar, A., Corcoran, S., ... Kaspar, B. K. (2017). Single-Dose Gene-Replacement Therapy for Spinal Muscular Atrophy. *The New England Journal of Medicine*, 377(18), 1713–1722. <https://doi.org/10.1056/NEJMoa1706198>
- Mercuri, E., Finkel, R. S., Muntoni, F., Wirth, B., Montes, J., Main, M., Mazzone, E. S., Vitale, M., Snyder, B., Quijano-Roy, S., Bertini, E., Davis, R. H., Meyer, O. H., Simonds, A. K., Schroth, M. K., Graham, R. J., Kirschner, J., Iannaccone, S. T., Crawford, T. O., ... SMA Care Group. (2018). Diagnosis and management of spinal muscular atrophy: Part 1: Recommendations for diagnosis, rehabilitation, orthopedic and nutritional care. *Neuromuscular Disorders: NMD*, 28(2), 103–115. <https://doi.org/10.1016/j.nmd.2017.11.005>
- Morfeld, M., Kirchberger, I., & Bullinger, M. (2011). *SF-36. Fragebogen zum Gesundheitszustand. Deutsche Version des Short Form-36 health Survey. Manual*. (2., ergänzte und überarbeitete Auflage).
- Mühlhauser, I., Lenz, M., & Meyer, G. (2011). Entwicklung, Bewertung und Synthese von komplexen Interventionen – eine methodische Herausforderung. *Zeitschrift für Evidenz, Fortbildung und Qualität im Gesundheitswesen*, 105(10), 751–761. <https://doi.org/10.1016/j.zefq.2011.11.001>
- Nakagawa, S., Johnson, P. C. D., & Schielzeth, H. (2017). The coefficient of determination R² and intra-class correlation coefficient from generalized linear mixed-effects models revisited and expanded. *Journal of the Royal Society, Interface*, 14(134), 20170213. <https://doi.org/10.1098/rsif.2017.0213>
- Parente, V., & Corti, S. (2018). Advances in spinal muscular atrophy therapeutics. *Therapeutic Advances in Neurological Disorders*, 11, 1756285618754501. <https://doi.org/10.1177/1756285618754501>
- Pechmann, A. (2017). *SMARTCARE - Verlaufsbeobachtung und Therapieevaluation bei Spinaler Muskelatrophie*. <https://www.smartcare.de/>
- Pechmann, A., Langer, T., & Kirschner, J. (2018). P 900. Decision Making Regarding Ventilator Support in Children with SMA type 1—A Cross-sectional Survey among German Physicians. *Neuropediatrics*, 49, P900. <https://doi.org/10.1055/s-0038-1676018>

- Porz, F. (2006). Verzahnung stationärer und ambulanter Versorgung in der Pädiatrie: Case Management. In A. Gerber & K. W. Lauterbach (Hrsg.), *Gesundheitsökonomie und Pädiatrie* (S. 115–122). Schattauer.
- Porz, F., & Podeswik, A. (2010). Case Management in der Kinder- und Jugendmedizin. In V. Brinkmann (Hrsg.), *Case Management: Organisationsentwicklung und Change Management in Gesundheits- und Sozialunternehmen* (S. 239–258). Gabler. https://doi.org/10.1007/978-3-8349-8589-7_10
- Qian, Y., McGraw, S., Henne, J., Jarecki, J., Hobby, K., & Yeh, W.-S. (2015). Understanding the experiences and needs of individuals with Spinal Muscular Atrophy and their parents: A qualitative study. *BMC Neurology*, *15*, 217. <https://doi.org/10.1186/s12883-015-0473-3>
- R Foundation for Statistical Computing. (2020). *R: A language and environment for statistical computing* [Methodology Reference]. <https://www.eea.europa.eu/data-and-maps/indicators/oxygen-consuming-substances-in-rivers/r-development-core-team-2006>
- Rallison, L. B., & Raffin-Bouchal, S. (2013). Living in the in-between: Families caring for a child with a progressive neurodegenerative illness. *Qualitative Health Research*, *23*(2), 194–206. <https://doi.org/10.1177/1049732312467232>
- Ravens-Sieberer, U., Morfeld, M., Stein, R. E., Jessop, D. J., Bullinger, M., & Thyen, U. (2001). [The testing and validation of the German version of the impact on family scale in families with children with disabilities]. *Psychotherapie, Psychosomatik, Medizinische Psychologie*, *51*(9–10), 384–393. <https://doi.org/10.1055/s-2001-16899>
- Simon, T. D., Whitlock, K. B., Haaland, W., Wright, D. R., Zhou, C., Neff, J., Howard, W., Cartin, B., & Mangione-Smith, R. (2017). Effectiveness of a Comprehensive Case Management Service for Children With Medical Complexity. *Pediatrics*, *140*(6). <https://doi.org/10.1542/peds.2017-1641>
- Singer, S. J., Burgers, J., Friedberg, M., Rosenthal, M. B., Leape, L., & Schneider, E. (2011). Defining and measuring integrated patient care: Promoting the next frontier in health care delivery. *Medical Care Research and Review: MCRR*, *68*(1), 112–127. <https://doi.org/10.1177/1077558710371485>
- Statistisches Bundesamt (Destatis). (2021). *Bruttoverdienste und Arbeitszeiten, Ergebnisse für das 4. Quartal 2021*.
- Stein, R. E., & Riessman, C. K. (1980). The development of an impact-on-family scale: Preliminary findings. *Medical Care*, *18*(4), 465–472. <https://doi.org/10.1097/00005650-198004000-00010>
- Van Houdt, S., Heyrman, J., Vanhaecht, K., Sermeus, W., & De Lepeleire, J. (2013). An in-depth analysis of theoretical frameworks for the study of care coordination. *International Journal of Integrated Care*, *13*, e024. <https://doi.org/10.5334/ijic.1068>
- Van Houdt, S., Sermeus, W., Vanhaecht, K., & De Lepeleire, J. (2014). Focus groups to explore healthcare professionals' experiences of care coordination: Towards a theoretical framework for the study of care coordination. *BMC Family Practice*, *15*, 177. <https://doi.org/10.1186/s12875-014-0177-6>
- Walton, H., Hudson, E., Simpson, A., Ramsay, A. I. G., Kai, J., Morris, S., Sutcliffe, A. G., & Fulop, N. J. (2020). Defining Coordinated Care for People with Rare Conditions: A Scoping Review. *International Journal of Integrated Care*, *20*(2), 14. <https://doi.org/10.5334/ijic.5464>

Akronym: SMA-C+

Förderkennzeichen: 01VSF18005

- Wang, C. H., Finkel, R. S., Bertini, E. S., Schroth, M., Simonds, A., Wong, B., Aloysius, A., Morrison, L., Main, M., Crawford, T. O., Trela, A., & Participants of the International Conference on SMA Standard of Care. (2007). Consensus statement for standard of care in spinal muscular atrophy. *Journal of Child Neurology*, 22(8), 1027–1049. <https://doi.org/10.1177/0883073807305788>
- Wendt, W. R. (2018). *Case Management im Sozial- und Gesundheitswesen: Eine Einführung*. Lambertus-Verlag.
- Willems, J., Bablok, I., Sehlbrede, M., Farin-Glattacker, E., & Langer, T. (2022). The German pediatric integrated care survey (PICS-D): Translation, adaptation, and psychometric testing. *Frontiers in Pediatrics*, 10. <https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fped.2022.1057256>
- Willems, J., Farin-Glattacker, E., & Langer, T. (2021). Evaluation of a Case Management to Support Families With Children Diagnosed With Spinal Muscular Atrophy—Protocol of a Controlled Mixed-Methods Study. *Frontiers in Pediatrics*, 9, 801. <https://doi.org/10.3389/fped.2021.614512>
- Willis, G. B. (2004). *Cognitive Interviewing: A Tool for Improving Questionnaire Design*. SAGE Publications.
- Yeo, C. J. J., & Darras, B. T. (2020). Overturning the Paradigm of Spinal Muscular Atrophy as Just a Motor Neuron Disease. *Pediatric Neurology*, 109, 12–19. <https://doi.org/10.1016/j.pediatrneurol.2020.01.003>
- Ziniel, S. I., Rosenberg, H. N., Bach, A. M., Singer, S. J., & Antonelli, R. C. (2016). Validation of a Parent-Reported Experience Measure of Integrated Care. *Pediatrics*, 138(6). <https://doi.org/10.1542/peds.2016-0676>

11. Anhang

Nicht zutreffend.

12. Anlagen

12.1. Anlagenliste

Anlage 1: PICS-D

- Anlage 1a: PICS-D.pdf
- Anlage 1b: Skalenbildung PICS-D.pdf

Anlage 2: Betreuungstagebuch.pdf

Anlage 3: Interviewleitfäden aus Phase 2

- Anlage 3a: Ist-Analyse_Interviewleitfaden_Behandelndeninterviews.pdf
- Anlage 3b: Ist-Analyse_Interviewleitfaden_Elterninterviews.pdf

Anlage 4: Interviewleitfäden aus Phase 3: (T0-T2) Interviewleitfaden_Eltern_(IG/KG).pdf

Anlage 5: CM Assessment: Mein SMA-Profil.pdf

Anlage 6: CM-Konzept.pdf

The Pediatric Integrated Care Survey,
deutsche Version (PICS-D)

Die Versorgungsqualität bei chronisch
erkrankten Kindern
- Elternfragebogen -



SEKTION FÜR VERSORGUNGSFORSCHUNG UND REHABILITATIONSFORSCHUNG

ZENTRUM FÜR KINDER- UND JUGENDMEDIZIN

Wie wird's gemacht?

Kinder mit einer chronischen Erkrankung haben häufig mehrere ÄrztInnen und TherapeutInnen, durch die sie regelmäßig betreut werden. Oft sind es die Eltern, die dafür sorgen, dass Informationen zwischen Behandelnden weitergegeben werden, damit „die rechte Hand weiß, was die Linke tut“. Doch nicht immer sind die Behandlungen so optimal aufeinander abgestimmt, wie sie sein sollten.

Mit diesem Fragebogen untersuchen wir erstmals in Deutschland, wie gut die Versorgung von Kindern und Jugendlichen mit einer chronischen Krankheit koordiniert ist. Dieser Fragebogen wurde von Wissenschaftlern in enger Zusammenarbeit mit betroffenen Familien in Boston (USA) entwickelt. Wir haben diesen Fragebogen ins Deutsche übersetzt und an die Verhältnisse in Deutschland angepasst.

Auf den nächsten Seiten würden wir gerne erfahren, wie Sie die Behandlung Ihres Kindes und die Koordination innerhalb des Versorgungsnetzes Ihres Kindes erleben. Mit Ihrer Teilnahme tragen Sie dazu bei, dass die Qualität der Gesundheitsversorgung von Kindern mit chronischen Erkrankungen verbessert werden kann. Aus Gründen der Lesbarkeit wurde im Fragebogen die männliche Form gewählt, nichtsdestoweniger beziehen sich alle Angaben auf beide Geschlechter.

Bitte gehen Sie bei der Beantwortung des Fragebogens der Reihe nach vor, Frage für Frage. **Lassen Sie bitte keine Frage aus** (es sei denn, Sie werden darauf hingewiesen).

- ✓ Die meisten Fragen des Fragebogens lassen sich beantworten, indem Sie die vorgegebenen Kästchen ankreuzen. Bitte machen Sie **pro Frage nur ein Kreuz** in die dafür vorgesehenen Kästchen.
- ✓ **Entscheiden Sie sich bitte für eine der Antwortmöglichkeiten.** Falls mehrere Antworten angekreuzt werden können, wird darauf speziell hingewiesen. Bitte beachten Sie auch, dass es manchmal erforderlich ist, Text oder Zahlen einzutragen.
- ✓ Falls eine Frage auf Sie nicht zutrifft, **kreuzen Sie bitte dennoch eine Antwort an.** Meistens werden Sie die passende Antwort finden, z.B. „Ich weiß es nicht.“
- ✓ Für den Fall, dass Sie Korrekturen vornehmen möchten (z.B. weil Sie das Kreuz an eine falsche Stelle gemacht haben), bitten wir Sie, das „falsche“ Feld **vollständig auszumalen** und das „richtige“ Feld **ganz normal anzukreuzen.**

Beispiel-Aussage	trifft voll und ganz zu	trifft zu	trifft eher zu	trifft eher nicht zu	trifft nicht zu	trifft überhaupt nicht zu
<i>Ich habe mich am Gespräch aktiv beteiligt.</i>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

- ✓ Bitte benutzen Sie zum Ausfüllen einen Kugelschreiber oder Füller und **keinen Blei- oder Filzstift.**
- ✓ Bitte vergessen Sie bei Eintragen eines Textes (z.B. bei der genauen Angabe einer anderen Antwortoption) nicht, auch das **dazugehörige Kästchen anzukreuzen.**

Wir danken Ihnen herzlich dafür, dass Sie sich die Zeit nehmen, an unserer Befragung teilzunehmen!

Diese ersten Fragen betreffen die Gesundheit Ihres Kindes sowie seine medizinische Versorgung. Bitte geben Sie an, inwieweit die folgenden Aussagen zutreffen.

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.			
(Bitte kreuzen Sie zu jeder Aussage <i>ein</i> Kästchen an.)			
	ja	nein	
Hat Ihr Kind Medikamente eingenommen, die von einem Arzt verschrieben wurden (außer Vitamine)?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	1
Hat Ihr Kind eine spezielle Therapie, wie z.B. Physiotherapie, Ergotherapie oder Logopädie, erhalten?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	2
Hatte Ihr Kind emotionale, entwicklungsbezogene (geistig oder motorisch) oder verhaltensbedingte Probleme, für die es eine Behandlung oder Beratung erhielt?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	3
Benötigte Ihr Kind medizinische Hilfsmittel, z.B. zur Unterstützung der Atmung (Beatmungsgerät, Sauerstoffmaske, Inhaliergerät), der Ernährung (Magen-/Duodenalsonden) oder der Mobilität (Rollstuhl, Spezialbett)?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	4
Gab es einen Kinderarzt, den Ihr Kind z.B. zu routinemäßigen Vorsorgeuntersuchungen oder regelmäßigen Kontrollen besuchte?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	5
	1	0	

Hat Ihr Kind eine der folgenden Gesundheitsleistungen in Anspruch genommen?	
Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.	
(Markieren Sie <i>alle</i> in Frage kommenden Kästchen.)	
<input type="checkbox"/> ₁ psychologische oder psychiatrische Behandlung bzw. Beratung	<input type="checkbox"/> ₆ Mobilitätshilfen oder -geräte (z.B. Rollstuhl, Reha-Buggy)
<input type="checkbox"/> ₂ Behandlung oder Beratung bei Substanzmissbrauch	<input type="checkbox"/> ₇ Kommunikationshilfen oder -geräte (z.B. Talker)
<input type="checkbox"/> ₃ medizinische Betreuung zu Hause	<input type="checkbox"/> ₈ Frühförderung
<input type="checkbox"/> ₄ Anschaffung einer Brille/Sehhilfe oder augenärztliche Untersuchung	<input type="checkbox"/> ₉ keine dieser Gesundheitsleistungen
<input type="checkbox"/> ₅ Anschaffung eines Hörgeräts/Hörhilfe oder Untersuchung durch HNO-Arzt	

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

	niemals	ein- oder zweimal	drei- bis fünfmal	sechsmal oder häufiger	
Wie oft hat Ihr Kind eine Notaufnahme im Krankenhaus und/oder einen ärztlichen Notdienst besucht?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	7
	1	2	3	4	

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

	niemals	ein- oder zweimal	dreimal oder häufiger	
Wie oft hatte Ihr Kind einen stationären Aufenthalt im Krankenhaus?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	8
	1	2	3	

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Bitte kreuzen Sie zu jeder Aussage **ein** Kästchen an.)

	ja, eindeutig	ja, teilweise	nein	
Hatten alle Behandelnden Zugang zu den für sie wichtigen medizinischen Unterlagen (z.B. Arztbriefe)? Wie ist Ihre Einschätzung?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	9
Konnte Ihr Kind aufgrund seiner Erkrankung <i>nicht</i> an den Dingen teilnehmen, die die meisten Kinder seines Alters tun können?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	10
Glauben Sie, dass Ihr Kind mehr medizinische Versorgung, psychologische oder pädagogische Betreuung brauchte bzw. erhielt, als für die meisten Kinder seines Alters üblich?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	11
	2	1	0	

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

	hat sich ständig geändert	hat sich häufig geändert	hat sich ab und zu geändert	hat sich nicht geändert	
Wie oft hat sich der gesundheitliche Versorgungsbedarf (z.B. bei Therapien, Hilfsmitteln, Pflege etc.) Ihres Kindes geändert?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	12
	4	3	2	1	

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Bitte kreuzen Sie zu jeder Aussage **ein** Kästchen an.)

	niemals	selten	manch- mal	normaler- weise	fast immer	immer	
Wie oft hatten Sie Schwierigkeiten bzgl. medizinischer oder sozialer Dienste (z.B. Therapien, Integrationshilfe etc.), weil es Wartelisten oder andere Probleme bei der Terminvergabe gab?	<input type="checkbox"/>	13					
Wie oft hatten Sie Schwierigkeiten bzgl. medizinischer oder sozialer Dienste (z.B. Therapien, Integrationshilfe etc.), weil Sie nicht wussten, wer der richtige Ansprechpartner ist?	<input type="checkbox"/>	14					
	1	2	3	4	5	6	

Welche der folgenden Behandelnden haben zur Versorgung Ihres Kindes beigetragen?

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Markieren Sie **alle** in Frage kommenden Kästchen.)

<input type="checkbox"/> ₁ Hausarzt/Kinderarzt	<input type="checkbox"/> ₆ Therapeuten, z.B. aus der Ergotherapie, Logopädie oder Physiotherapie	15
<input type="checkbox"/> ₂ Facharzt	<input type="checkbox"/> ₇ Sozialarbeiter	
<input type="checkbox"/> ₃ medizinische Unterstützung im häuslichen Bereich, wie z.B. ambulante Kinderkrankenpflege	<input type="checkbox"/> ₈ komplementär- und alternativmedizinisch Behandelnde, wie z.B. Akupunkteure, Kräuterheilpraktiker, Yoga-Therapeuten etc.	
<input type="checkbox"/> ₄ medizinische Unterstützung im schulischen Bereich, wie z.B. Schulkrankenpfleger, Schulpsychologe	<input type="checkbox"/> ₉ Integrationshilfen im Kindergarten	
<input type="checkbox"/> ₅ verhaltensmedizinisch Behandelnde, wie z.B. Psychiater, Psychologen, Psychotherapeuten, Berater	<input type="checkbox"/> ₁₀ andere (bitte genaue Angaben): _____	

Hat Ihr Kind Spezialisten für folgende Fachgebiete aufgesucht?

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Markieren Sie **alle** in Frage kommenden Kästchen.)

<input type="checkbox"/> ¹	Allergie/Immunologie (bezogen auf allergische Erkrankungen und das Immunsystem)	<input type="checkbox"/> ¹³	Säuglingsmedizin/Neonatalogie (Neugeborene mit speziellen Bedürfnissen betreffend)	16
<input type="checkbox"/> ²	Kardiologie (das Herz betreffend)	<input type="checkbox"/> ¹⁴	Ernährung (im Zusammenhang mit Ernährungsproblemen und Wachstum)	
<input type="checkbox"/> ³	Dermatologie (die Haut betreffend)	<input type="checkbox"/> ¹⁵	Augenheilkunde	
<input type="checkbox"/> ⁴	Neuropädiatrie (in Bezug auf Entwicklung und neurologische Erkrankungen)	<input type="checkbox"/> ¹⁶	Hals-Nasen-Ohren-Heilkunde	
<input type="checkbox"/> ⁵	Endokrinologie (in Bezug auf Wachstum, Hormone, einschließlich Diabetes)	<input type="checkbox"/> ¹⁷	Plastische Chirurgie (im Zusammenhang mit Lippenpalten-/Gaumenspaltenoperationen)	
<input type="checkbox"/> ⁶	Gastroenterologie (das Verdauungssystem betreffend)	<input type="checkbox"/> ¹⁸	Psychiatrie (in Bezug auf Verhalten und die psychische Gesundheit)	
<input type="checkbox"/> ⁷	Allgemeine Chirurgie (für Maßnahmen, wie das Einsetzen von Ernährungssonden, Beatmungsschläuchen etc.)	<input type="checkbox"/> ¹⁹	Pulmologie (in Bezug auf Lunge und Atmung)	
<input type="checkbox"/> ⁸	Genetik (im Zusammenhang mit Erbkrankheiten)	<input type="checkbox"/> ²⁰	Rheumatologie (die Gelenke, das Immunsystem betreffend)	
<input type="checkbox"/> ⁹	Gynäkologie (in Bezug auf das weibliche Fortpflanzungssystem)	<input type="checkbox"/> ²¹	Orthopädie (bezogen auf den Bewegungsapparat)	
<input type="checkbox"/> ¹⁰	Hämatologie (das Blut und die Blutgefäße betreffend)	<input type="checkbox"/> ²²	Urologie (die Harnwege, die männliche Reproduktion betreffend)	
<input type="checkbox"/> ¹¹	Nephrologie (bezogen auf die Niere)	<input type="checkbox"/> ²³	keinen dieser Spezialisten	
<input type="checkbox"/> ¹²	Neurochirurgie (das Gehirn und die Nerven betreffend)			

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

	2-5	6-10	11-15	16-20	> 20	
Wie viele unterschiedliche Spezialisten, Therapeuten und andere Behandelnde waren an der Versorgung Ihres Kindes beteiligt?	<input type="checkbox"/>	17				
	1	2	3	4	5	

Die Versorgung vieler chronisch erkrankter Kinder ist nur durch eine Vielzahl von Behandelnden möglich. Diese befinden sich nicht immer an einem Ort. Häufig sind Therapeuten (z.B. Physiotherapeuten) näher am Wohnort, während sich Spezialisten (z.B. Fachärzte) eher in weiter entfernten Zentren befinden.

In den folgenden Fragen wird Ihnen der Begriff „Versorgungsnetz“ begegnen. Unter den Mitgliedern des Versorgungsnetzes verstehen wir **alle** Spezialisten, Therapeuten, Pflegefachkräfte und andere Behandelnde, *die an der Versorgung Ihres Kindes während der vergangenen 12 Monate beteiligt waren.*

Manchmal kann es sein, dass die Berufsgruppen sich unterschiedlich verhalten haben. Dennoch möchten wir Sie bitten den „Durchschnitt“ anzugeben.

Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.							
(Bitte kreuzen Sie zu jeder Aussage ein Kästchen an.)							
	niemals	selten	manchmal	normalerweise	fast immer	immer	
Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Ihnen Dinge so erklärt, dass Sie sie verstehen konnten?	<input type="checkbox"/>	18					
Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Behandlungsempfehlungen zwischen den Mitgliedern des Versorgungsnetzes weitergegeben wurden?	<input type="checkbox"/>	19					
	1	2	3	4	5	6	

Manchmal haben Eltern Bedenken zur Gesundheit und Versorgung Ihres Kindes. Wie oft ist es Ihnen leicht gefallen, den Mitgliedern des Versorgungsnetzes Ihre Bedenken mitzuteilen?						
Beziehen Sie sich bitte auf die vergangenen 12 Monate.						
(Bitte kreuzen Sie ein Kästchen an.)						
niemals	selten	manchmal	normalerweise	fast immer	immer	Ich hatte keine Bedenken.
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
1	2	3	4	5	6	7

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Bitte kreuzen Sie zu jeder Aussage **ein** Kästchen an.)

	niemals	selten	manchmal	normalerweise	fast immer	immer	
Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Sie von den Mitgliedern des Versorgungsnetzes gehört wurden, wenn Sie etwas über die Gesundheit Ihres Kindes zu sagen hatten?	<input type="checkbox"/>	21					
Wie oft wurde mit Ihnen besprochen, wer für die verschiedenen Bereiche der Versorgung Ihres Kindes verantwortlich ist?	<input type="checkbox"/>	22					
	1	2	3	4	5	6	

Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes über alle Tests und Untersuchungen Ihres Kindes informiert waren, um unnötige Untersuchungen zu vermeiden?

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

niemals	selten	manchmal	normalerweise	fast immer	immer	Ich weiß es nicht.	
<input type="checkbox"/>	23						
1	2	3	4	5	6	7	

Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes ihre Aufgaben in der Versorgung Ihres Kindes erfüllten?

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

niemals	selten	manchmal	normalerweise	fast immer	immer	Ich weiß es nicht.	
<input type="checkbox"/>	24						
1	2	3	4	5	6	7	

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Bitte kreuzen Sie zu jeder Aussage **ein** Kästchen an.)

	niemals	selten	manch- mal	normaler- weise	fast immer	immer	
Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes bei der Betreuung Ihres Kindes seine Gesamtsituation berücksichtigt haben, d.h. alle Bedürfnisse Ihres Kindes?	<input type="checkbox"/>	25					
Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Sie als vollwertige/n Partner/in behandelt?	<input type="checkbox"/>	26					
Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen darüber gesprochen, wie sich Entscheidungen über die Versorgung Ihres Kindes auf Ihre ganze Familie auswirken werden?	<input type="checkbox"/>	27					
Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen über Belastungen gesprochen, die sich für Sie durch die Erkrankung Ihres Kindes ergeben können?	<input type="checkbox"/>	28					
Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Situationen angesprochen, die es Ihnen schwer machen können, sich um die Gesundheit Ihres Kindes zu kümmern (z.B. Arbeit, eigene Krankheit etc.)?	<input type="checkbox"/>	29					
Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes angeboten, mit Ihnen auf andere Weise als durch einen persönlichen Besuch zu kommunizieren (z.B. Telefon, E-Mail oder Skype), wenn keine körperliche Untersuchung erforderlich war?	<input type="checkbox"/>	30					
Wie oft haben Ihnen die Mitglieder des Versorgungsnetzes die Möglichkeit angeboten, mit anderen betroffenen Familien in Kontakt zu treten?	<input type="checkbox"/>	31					
	1	2	3	4	5	6	

Wer hat *überwiegend* dafür gesorgt, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes über die Gesundheit oder Pflege Ihres Kindes informiert wurden?

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Markieren Sie **alle** in Frage kommenden Kästchen.)

<input type="checkbox"/> ₁ ich	<input type="checkbox"/> ₅ Pflegekoordinator/Case Manager/Sozialarbeiter	32
<input type="checkbox"/> ₂ ein anderes Familienmitglied/ein/e Freund/in der Familie	<input type="checkbox"/> ₆ andere (bitte genaue Angaben): _____	
<input type="checkbox"/> ₃ Hausarzt oder Kinderarzt	<input type="checkbox"/> ₇ in der Regel keine bestimmte Person	
<input type="checkbox"/> ₄ Facharzt		

Hatten die Mitglieder des Versorgungsnetzes regelmäßige Besprechungen bzgl. der Versorgung Ihres Kindes?

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

<input type="checkbox"/> ₁ Ja.	<input type="checkbox"/> ₃ Nein, aber ich glaube nicht, dass diese Treffen für die Versorgung meines Kindes notwendig sind.	33
<input type="checkbox"/> ₂ Nein, aber es hätte meinen Wünschen entsprochen.	<input type="checkbox"/> ₄ Ich weiß es nicht.	

Nur, falls Sie mit „Ja.“ geantwortet haben, springen Sie bitte zu **dieser Frage**.
Bei Auswahl einer anderen Antwortmöglichkeit springen Sie bitte zur **nächsten Seite**.

Wer hat *normalerweise* diese Besprechungen geplant?

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Markieren Sie **alle** in Frage kommenden Kästchen.)

<input type="checkbox"/> ₁ ich	<input type="checkbox"/> ₅ Pflegekoordinator/Case Manager/Sozialarbeiter	34
<input type="checkbox"/> ₂ ein anderes Familienmitglied/ein/e Freund/in der Familie	<input type="checkbox"/> ₆ andere (bitte genaue Angaben): _____	
<input type="checkbox"/> ₃ Hausarzt oder Kinderarzt	<input type="checkbox"/> ₇ in der Regel keine bestimmte Person	
<input type="checkbox"/> ₄ Facharzt		

Wer hat *normalerweise* Besuche und medizinische Behandlungen koordiniert?

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Markieren Sie **alle** in Frage kommenden Kästchen.)

<input type="checkbox"/> ₁ ich	<input type="checkbox"/> ₅ Pflegekoordinator/Case Manager/Sozialarbeiter	35
<input type="checkbox"/> ₂ ein anderes Familienmitglied/ein/e Freund/in der Familie	<input type="checkbox"/> ₆ andere (bitte genaue Angaben): _____	
<input type="checkbox"/> ₃ Hausarzt oder Kinderarzt	<input type="checkbox"/> ₇ in der Regel keine bestimmte Person	
<input type="checkbox"/> ₄ Facharzt		

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

ja

nein

Haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes kurzfristige Behandlungsziele für Ihr Kind gesetzt, d.h. Ziele **bis zu 6 Monaten** in der Zukunft?

36

1

0

Beziehen Sie sich bitte auf die *vergangenen 12 Monate*.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

ja

nein

Haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes langfristige Behandlungsziele für Ihr Kind gesetzt, d.h. Ziele, die **6 Monate oder länger** in der Zukunft liegen?

37

1

0

Im Folgenden finden Sie einige Fragen zu Ihrer Person und Ihrem Kind.

Bitte kreuzen Sie das Zutreffende an.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

	männlich	weiblich	divers	
Welches Geschlecht haben Sie?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	38
	1	2	3	

Wie alt sind Sie?

Jahre

39

In welcher Beziehung stehen Sie zu dem Kind, über das Sie in dieser Umfrage Auskunft gegeben haben?

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

<input type="checkbox"/> ₁ Mutter/weibliche Erziehungsberechtigte	<input type="checkbox"/> ₃ andere/r erwachsene/r Verwandte/r	40
<input type="checkbox"/> ₂ Vater/männlicher Erziehungsberechtigter	<input type="checkbox"/> ₄ jemand anderes, bitte näher erläutern: _____	

Seit wann leben Sie in Deutschland?

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

<input type="checkbox"/> ₁ seit der Geburt	<input type="checkbox"/> ₂ seit <input type="text"/> <input type="text"/> <input type="text"/> <input type="text"/> (Jahr)	41
---	---	----

Bitte geben Sie Ihren höchsten Bildungsabschluss an.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

<input type="checkbox"/> 1 keinen Schulabschluss	<input type="checkbox"/> 6 Hochschule/Universität (Bachelor)	42
<input type="checkbox"/> 2 Grund-/Haupt-/Realschule	<input type="checkbox"/> 7 Hochschule/Universität (Master)	
<input type="checkbox"/> 3 Abitur/Allgemeine Hochschulreife	<input type="checkbox"/> 8 Hochschule/Universität (Promotion)	
<input type="checkbox"/> 4 abgeschlossene Ausbildung	<input type="checkbox"/> 9 andere	
<input type="checkbox"/> 5 Fachhochschulabschluss		

Bitte nennen Sie Ihren Familienstand.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

<input type="checkbox"/> 1 ledig	<input type="checkbox"/> 4 geschieden/getrennt lebend	43
<input type="checkbox"/> 2 verheiratet	<input type="checkbox"/> 5 verwitwet	
<input type="checkbox"/> 3 in einer festen Partnerschaft lebend		

Welche der folgenden Kategorien beschreibt am besten Ihren Erwerbsstatus?

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

<input type="checkbox"/> 1 Angestellte/r, Vollzeit (wöchentliche Arbeitszeit von 35 Stunden und mehr)	<input type="checkbox"/> 5 selbstständig	44
<input type="checkbox"/> 2 Angestellte/r, Teilzeit (wöchentliche Arbeitszeit von 15 bis 34 Stunden)	<input type="checkbox"/> 6 nicht erwerbstätig	
<input type="checkbox"/> 3 Angestellte/r, stundenweise (wöchentliche Arbeitszeit unter 15 Stunden)	<input type="checkbox"/> 7 nicht erwerbsfähig	
<input type="checkbox"/> 4 Beamte/r	<input type="checkbox"/> 8 andere	

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

männlich

weiblich

divers

Welches Geschlecht hat Ihr Kind?

1

2

3

45

Wie alt ist Ihr Kind?

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

1 Säugling (jünger, als 1 Jahr)

4 älter, als 12 und jünger, als 18 Jahre

46

2 1 bis 3 Jahre

5 älter, als 18 Jahre

3 älter, als 3 und jünger, als 12 Jahre

Welche Art der Krankenversicherung deckt die meisten oder alle Kosten der medizinischen Versorgung Ihres Kindes?

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

1 gesetzlich

3 privat

47

2 gesetzlich mit Zusatzversicherung

4 Ich weiß es nicht.

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

ja

nein

Wurde Ihr Kind im Ausland geboren?

48

1

0

Welche Sprache sprechen Sie überwiegend zu Hause?

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

1 Deutsch

7 Chinesisch

49

2 Türkisch

8 Englisch

3 Russisch

9 Italienisch

4 Polnisch

10 Französisch

5 Arabisch

11 Spanisch

6 Kurdisch

12 andere

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

1 2 3 4 ≥ 5

Wie viele *Erwachsene* **über** 18 Jahre leben in Ihrem Haushalt (Sie selbst dazu gezählt)?

50

1 2 3 4 5

(Bitte kreuzen Sie **ein** Kästchen an.)

0 1 2 3 4 ≥ 5

Wie viele *Kinder* **unter** 18 Jahren leben in Ihrem Haushalt?

51

Wie viele *Kinder* **unter** 18 Jahren (**ohne** das Kind, zu dem Sie die Fragen in dieser Umfrage beantwortet haben) haben *spezielle gesundheitliche Bedürfnisse*, die es erfordern, dass Sie mehrere Behandelnde aufsuchen müssen?

52

1 2 3 4 5 6

Wenn Sie Bemerkungen oder Anregungen bzgl. des Fragebogens haben, können Sie diese gerne hier notieren.

53

Wir danken Ihnen herzlich für Ihre Unterstützung!

Bitte schicken Sie ein unterschriebenes Exemplar der **Einwilligungserklärung** sowie den ausgefüllten **Fragebogen** *ohne weitere Angaben zu Ihrer Person* im beigefügten Rückumschlag an die unten angegebene Adresse der Klinik für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen des Universitätsklinikums Freiburg (z. Hd. Herrn PD Dr. med. Thorsten Langer).

Ansprechpartner:

PD Dr. med. Thorsten Langer
Leitung Sozialpädiatrisches Zentrum
AG Versorgungsforschung

Klinik für Neuropädiatrie und Muskelerkrankungen
Zentrum für Kinder- und Jugendmedizin
UNIVERSITÄTSKLINIKUM FREIBURG

Mathildenstr. 1 · 79106 Freiburg
Telefon: +49 761 270-43442
Telefax: +49 761 270-44460

Skalenbildung des PICS-D

Insgesamt gibt es drei Facetten, die im Fragebogen vorliegen. Die Facetten heißen „Teamqualität & -kommunikation“, „Auswirkungen auf die Familie“ und „Zugang zur Versorgung“. Es werden nur zwei Facetten zur Skalenbildung verwendet, da die Facette „Zugang zur Versorgung“ mangelhafte psychometrische Eigenschaften aufweist. Die Likertskala wird wie folgt kodiert: nie = 1, selten = 2, manchmal = 3, normalerweise = 4, fast immer = 5, immer = 6. Skalenwerte sind die Mittelwerte über die skalenspezifischen Items.

Teamqualität & -kommunikation

Zu dieser Facette gehören insgesamt 7 Items. Keines dieser Items muss vor der Skalenbildung umgepolt werden. Zur Skalenbildung sind 20% fehlende Werte erlaubt. Zu dieser Facette gehören folgende Items:

1. Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Ihnen Dinge so erklärt, dass Sie sie verstehen konnten?
2. Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Behandlungsempfehlungen zwischen den Mitgliedern des Versorgungsnetzes weitergegeben wurden?
3. Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass Sie von den Mitgliedern des Versorgungsnetzes gehört wurden, wenn Sie etwas über die Gesundheit Ihres Kindes zu sagen hatten?
4. Wie oft wurde mit Ihnen besprochen, wer für die verschiedenen Bereiche der Versorgung Ihres Kindes verantwortlich ist?
5. Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes ihre Aufgaben in der Versorgung Ihres Kindes erfüllten?
 - o Die zusätzliche Antwortoption "Ich weiß es nicht." als 7. Antwortoption zur Likert-Skala wird als fehlender Wert bewertet.
6. Wie oft hatten Sie das Gefühl, dass die Mitglieder des Versorgungsnetzes bei der Betreuung Ihres Kindes seine Gesamtsituation berücksichtigt haben, d.h. alle Bedürfnisse Ihres Kindes?
7. Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Sie als vollwertige/n Partner/in behandelt?

Auswirkungen auf die Familie

Zu dieser Facette gehören insgesamt 4 Items. Keines dieser Items muss vor der Skalenbildung umgepolt werden. Zu dieser Facette gehören folgende Items:

1. Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen darüber gesprochen, wie sich Entscheidungen über die Versorgung Ihres Kindes auf Ihre ganze Familie auswirken werden?
2. Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes mit Ihnen über Belastungen gesprochen, die sich für Sie durch die Erkrankung Ihres Kindes ergeben können?
3. Wie oft haben die Mitglieder des Versorgungsnetzes Situationen angesprochen, die es Ihnen schwer machen können, sich um die Gesundheit Ihres Kindes zu kümmern (z.B. Arbeit, eigene Krankheit etc.)?
4. Wie oft haben Ihnen die Mitglieder des Versorgungsnetzes die Möglichkeit angeboten, mit anderen betroffenen Familien in Kontakt zu treten?

BETREUUNGSTAGEBUCH FÜR ELTERN

Liebe Familie _____,

zunächst einmal vielen Dank, dass Sie uns bei unserem Forschungsprojekt unterstützen! Ziel des Projekts ist es, das Zusammenwirken zwischen an der Behandlung beteiligten Personen zu verbessern, um die Versorgungsqualität von Patienten mit SMA 1 und 2 zu steigern sowie betroffene Familien zu entlasten. Dafür ist es für uns wichtig zu erfahren, wie umfangreich der Anteil ist, den Sie selbst an der Betreuung Ihres Kindes übernehmen. Mit diesem Betreuungstagebuch bitten wir Sie, die **organisatorischen Tätigkeiten** zu notieren, die Sie übernommen haben, damit Ihr Kind gesundheitlich gut versorgt ist. Beispiele für diese Tätigkeiten finden Sie auf der Rückseite dieser Vorlage.

Bitte füllen Sie das Tagebuch insgesamt **4 Wochen (28 Tage)** lang aus. Tragen Sie bitte zunächst in der obersten Zeile des Formulars (S. 3) Ihren **Dokumentationszeitraum** ein (d.h. Anfangs- und Enddatum; z.B. 06.04.2020 – 04.05.2020).

Anschließend tragen Sie bitte **für jeden Tag** ein:

- **welche** Tätigkeit Sie ausgeübt haben,
- **wie lange** sie in etwa gedauert hat (in Minuten),
- ob Sie mit dem **Ergebnis zufrieden** sind (nach Schulnoten: 1 = *sehr gut* bis 6 = *unbefriedigend*),
- **was Ihnen helfen würde**, diese Aufgabe besser erledigen zu können und ob die Aufgabe auch eine **andere Person** übernehmen könnte, um Sie zu entlasten.

Schicken Sie nach dem Ausfüllen die zusammen gehefteten **Seiten 3-10 ohne diese Anleitung und ohne weitere Angaben zu Ihrer Person** (aus Gründen der Anonymität) im beigefügten, kostenfreien Rückumschlag an die Sektion Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung.

Herzlichen Dank für Ihre Mühe und Mitarbeit!

BEISPIELE:

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?
05.07.19	Terminverschiebung Kinderarzt	14	2	Leichtere Erreichbarkeit der Praxis	nein
06.07.19	Einspruch schreiben gegen Ablehnung der Krankenkasse	30	3	Formulierungshilfe von anderen Eltern	Nicht so richtig, aber Unterstützung durch Selbsthilfe wäre gut
08.07.19	Fahrt zur Physiotherapie	60	1	Praxis in der Nähe	Nein
10.07.19	Internetrecherche zu neuen Therapiemöglichkeiten	45	3	Information zur Verlässlichkeit von Quellen	Nein, aber kompetenter Gesprächspartner zum Diskutieren wäre gut

Notieren Sie bitte **alle** Tätigkeiten, die Ihnen in den Sinn kommen - auch wenn Sie nicht sicher sein sollten, ob Ihre Tätigkeit „organisatorisch“ ist oder nicht.

Falls an einem Tag keine Tätigkeiten angefallen sind, brauchen Sie diesen Tag nicht in die Liste mit aufzunehmen.

2	0	1		
---	---	---	--	--

BETREUUNGSTAGEBUCH FÜR DEN ZEITRAUM: _____ - _____

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

2	0	1		
---	---	---	--	--

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

2	0	1		
---	---	---	--	--

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

2	0	1		
---	---	---	--	--

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

2	0	1		
---	---	---	--	--

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

2	0	1		
---	---	---	--	--

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

2	0	1		
---	---	---	--	--

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

2	0	1		
---	---	---	--	--

Datum	Tätigkeit (Organisation oder Koordination)	Dauer (ungefähr in Minuten)	Zufrieden- heit mit dem Ergebnis (Schulnote)	Was würde zur Verbesserung beitragen?	Könnte diese Aufgabe auch eine andere Person übernehmen? Wenn ja, wer?

Interview-Leitfaden für Interviews mit Behandelnden von Patient*innen mit SMA

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen. Es geht um das Projekt „Entwicklung und Evaluation eines IT-gestützten Case Managements zur Verbesserung der Versorgung von Patienten mit Spinaler Muskelatrophie (SMA-C+)“.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Universitäts-Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 45 Minuten vorgesehen.

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet, damit wir Ihre Aussagen gründlich auswerten können. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese bei der Transkription gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende (Januar 2020) wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie mit damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Das heutige Gespräch mit Ihnen findet im Rahmen eines Forschungsprojekts statt, das die Universitäts-Kinderklinik in Kooperation mit der SEVERA durchführt.

Ziel dieses Projekts ist das Zusammenwirken zwischen allen Personen, die an der Behandlung von Kindern mit Spinaler Muskelatrophie 1 und 2 beteiligt sind, zu verbessern, um die Versorgungsqualität zu steigern und die betroffenen Familien zu entlasten.

Um zu überprüfen, ob das Projekt zu Verbesserungen führt, benötigen wir eine Einschätzung der aktuellen alltäglichen Versorgungssituation als Grundlage unserer Planungen. Damit wir diese möglichst realistisch abbilden können, sind wir auf Ihre praktische Erfahrung angewiesen.

Roles

1. An XX Versorgung sind mehrere Ärzte, Therapeuten, etc. beteiligt.
 - Wie sehen Sie dabei **Ihre Rolle** als [Profession]?
 - Was sind Ihre (Haupt-) **Aufgaben**?
2. Mit welchen anderen Vertretern dieses Versorgungsnetzes stehen Sie im **regelmäßigen Austausch**? (z.B. Kinderarzt)

Optionale Fragen für den Fall, dass es hauptsächlich eine formelle Verbindung zwischen Kinderarzt und restl. Behandelnden gibt:

3. Gibt es **andere Kinder mit chronischer Erkrankung**, die bei Ihnen in Behandlung sind?
 - Läuft die Versorgung bei diesen Kindern anders? Können Sie konkrete Beispiele nennen?
4. Ist das für Sie in Ordnung, dass der Austausch eher auf einer formellen Ebene existiert oder würden Sie es sich anders wünschen?

Collaboration

5. Wie erleben Sie Zusammenarbeit mit den **anderen Beteiligten**?
Was läuft gut? Was läuft nicht gut? Gibt es konkrete Erlebnisse, die Ihnen dazu einfallen?
6. Wie erleben Sie die Zusammenarbeit mit dem **Uniklinikum** als spezialisiertem Zentrum?
Was läuft gut? Was läuft nicht gut? Gibt es konkrete Erlebnisse, die Ihnen dazu einfallen?
7. Welche **Verantwortung und Zuständigkeiten** im Rahmen der Behandlung haben aus Ihrer Sicht die verschiedenen Behandelnden?
 - Gibt es eine Stelle, die für die **Gesamtbehandlung** medizinisch **verantwortlich** ist?
8. Optional: Haben Sie immer die Informationen zu XX, die Sie benötigen, um entscheiden und handeln zu können?

Goal setting

9. Wie würden Sie als [Profession] die **Behandlungsziele** in XX Fall formulieren?
 - Optional: Unterscheiden sich diese Ziele im Alltag oft von denen der anderen Behandelnden inkl. Uniklinikum sowie der Familie?
10. Welche Faktoren erschweren es, gemeinsame, explizite Behandlungsziele zu finden?

Going forward

11. Wie könnte die **Zusammenarbeit** unter den Behandelnden fallbezogen, bei einem Patienten/einer Patientin wie XX **verbessert** werden?
12. Optional: Welche Wünsche oder Anregungen haben Sie an das **Case-Management** seitens der Uniklinik, das wir für SMA-Patienten entwickeln möchten?

Case Management

- Individuelle andauernde Begleitung & Problembearbeitung einer Person oder Familie
 - Austausch von medizinischen und organisatorischen Informationen zwischen Familien und Behandelnden
 - Bedarfsorientierte Vernetzungsarbeit
- Zusätzlich zu den bisher üblichen Versorgungsleistungen; bestehend aus einer personellen und einer IT-Komponente
- Ziele: u.a. stärker Patienten-orientierte Versorgung, Stärkung des Selbstmanagements der Eltern

Soziodemographische Informationen

1. Optional: Seit wann sind Sie in der Niederlassung tätig?
2. Optional: Hat Ihre Praxis einen Schwerpunkt?
3. Optional: Arbeiten Sie alleine oder in einer Gemeinschaftspraxis?
4. **Wie viele Patienten mit SMA befinden sich aktuell in ihrer Betreuung?**
5. **Wie viele Patienten haben Sie bislang (seit Ihrer Niederlassung) in etwa betreut?**

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

Interview-Leitfaden für Interviews mit Angehörigen von Patient*innen mit SMA

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 60 Minuten vorgesehen.
- *Am Telefon:* Sie haben diesen Termin als Wunschtermin genannt. Passt es Ihnen denn gerade immer noch gut?

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende (Januar 2020) wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie mit damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Das heutige Gespräch mit Ihnen findet im Rahmen eines Forschungsprojekts statt, das die Kinderklinik in Kooperation mit der SEVERA durchführt.

Ziel dieses Projekts ist das Zusammenwirken zwischen allen Personen, die an der Behandlung von Kindern mit SMA 1 und 2 beteiligt sind, zu verbessern, um die Versorgungsqualität zu steigern und die betroffenen Familien zu entlasten.

Um zu überprüfen, ob das Projekt zu Verbesserungen führt, benötigen wir zunächst eine Einschätzung der aktuellen Versorgungssituation als Grundlage unserer Planungen. Damit wir diese möglichst realistisch abbilden können, sind wir auf Ihre Erfahrung angewiesen.

Allgemeine Erfahrungen bzgl. der Versorgung eines Kindes mit der Diagnose SMA I oder II

1. Gerne würde ich Ihren Familienalltag kennenlernen.
Können Sie mir bitte von einem typischen Wochentag, z.B. Montag, mit Ihrem Kind erzählen?
Wie läuft der ab?
2. Ich werde Ihnen jetzt einen Abschnitt vorlesen und würde Sie bitten anschließend Ihre Meinung dazu zu äußern.

„Kinder mit SMA haben mehrere Ärzte und Therapeuten, die sie regelmäßig sehen und betreuen. Doch nicht immer ist die Behandlung so optimal aufeinander abgestimmt, wie sie sein sollte. Oft sind es die Eltern, die dafür sorgen, dass Informationen zwischen Ärzten und Therapeuten weitergegeben werden – in vielen Studien werden die Eltern chronisch kranker Kinder auch als Experten bzgl. des gesundheitlichen Befindens des eigenen Kindes bezeichnet.“ Wie sehen Sie das?

Erfahrungen im Versorgungsnetz

3. Können Sie mir alle Berufsgruppen nennen, die an der Versorgung Ihres Kindes beteiligt sind?
4. Was bedeutet das für Sie, dass Ihr Kind von verschiedenen Therapeuten und Ärzten betreut wird?
 - a. Optional: Was läuft in Ihren Augen dabei gut? Was läuft Ihrer Ansicht nach eher nicht so gut?
5. Wie würden Sie die Zusammenarbeit zwischen den medizinischen Fachkräften und Ihnen beschreiben?
 - a. Optional: Haben Sie das Gefühl, Sie werden in Ihren Anliegen wahrgenommen?
 - b. Optional: Erleben Sie die verschiedenen Fachkräfte als „Team“, das gut aufeinander abgestimmt vorgeht?

Erfahrungen mit der Behandlungskoordination

6. Welche Aufgaben haben Sie aktuell bei der Versorgung Ihres Kindes?
 - c. Optional: Welche Aufgaben übernehmen Sie gerne und von welchen würden Sie sich wünschen, dass sie jemand anderes übernehme?
7. Wie würde eine perfekte Versorgung Ihres Kindes aussehen?
 - d. Optional: Glauben Sie, dass es jemanden geben müsste, der die „Gesamtsituation“ im Überblick behält? Welche Person könnte das sein?

Für Teilnehmende aus Freiburg

8. Wir planen die Entwicklung einer App für Smartphones, mit der Eltern direkt mit der Klinik kommunizieren können, um z.B. Informationen zu Terminen oder Befunde auszutauschen. Was halten Sie von dieser Idee? Könnten Sie sich grundsätzlich vorstellen, eine solche App auszuprobieren?

Schlussfrage

9. Gibt es noch etwas, das Sie mir sagen möchten?

Erinnerung Betreuungstagebuch

- Ich habe noch ein kurzes Anliegen: Sie haben im Informationsschreiben sicher gelesen, dass ein Betreuungstagebuch eingesetzt werden soll.
 - Haben Sie die Vorlage dafür schon erhalten?
 - Wenn nein: Diese wird Ihnen zeitnah zugeschickt.
 - Wenn ja: Haben Sie diesbezüglich Fragen oder ist Ihnen alles klar?

Falls noch nicht erhalten:

- Für uns ist es wichtig ganz genau zu erfahren, wie umfangreich der Anteil ist, den Sie selbst an der Betreuung Ihres Kindes übernehmen. Mit diesem Betreuungstagebuch bitten wir Sie, 4 Wochen lang täglich die organisatorischen Tätigkeiten zu notieren, die Sie übernommen haben, damit Ihr Kind gesundheitlich gut versorgt ist. Beispiele dafür und was genau dokumentiert werden soll, finden Sie in der Anleitung.

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

T0-Interview-Leitfaden für Interviews mit Angehörigen zur Verlaufsevaluation des CM (IG)

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 15 Minuten vorgesehen.
- *Am Telefon:* Sie haben diesen Termin als Wunschtermin genannt. Passt es Ihnen denn gerade immer noch gut?

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Das heutige Gespräch mit Ihnen findet im Rahmen des Forschungsprojekts statt, das die Kinderklinik in Kooperation mit der SEVERA durchführt. Das aktuelle Teilziel des Forschungsprojekts ist es, zu verstehen wie das Case Management die Versorgung verbessern kann.

Kürzlich hat das Case Management begonnen, d.h. Sie haben den Basisbogen „Mein SMA-Profil“ ausgefüllt und hatten das erste Gespräch mit der Case Managerin Frau XX.

Fragen zum CM

1. Was ist Ihnen beim Ausfüllen des Basisbogens „Mein SMA-Profil“ aufgefallen?
 - a. Optional: Was war positiv? Was hätte man anders machen können?
2. Wenn Sie an das erste Telefonat mit der Case Managerin Fr. XX denken, was ist Ihnen dabei aufgefallen?
 - a. Optional: Was war positiv? Was hätte man anders machen können?

3. Wirkt sich das Case Management (schon) auf die Versorgung Ihres Kindes aus?
 - a. Optional: Gibt es Dinge, die Sie durch das CM anders machen?
 - b. Optional: Gibt es Dinge, die durch das CM einfacher werden (könnten)?
4. Haben Sie Wünsche oder Anregungen für die Entwicklung des Case Managements in den nächsten Wochen/Monaten?

Fragen zu sekundären Outcomes

1. Mussten Sie sich in der letzten Zeit krankmelden, um die Versorgung ihres Kindes zu gewährleisten?
2. Benötigte Ihr Kind in den letzten 3 Monaten ungeplante medizinische oder therapeutische Leistungen? (Z.B. ungeplanter Arztbesuch, stationäre Behandlung)?
3. Optional: Gab es in der Versorgung ihres Kindes Ereignisse, die man hätte vermeiden können, wenn die Organisation/Koordination besser gewesen wäre?

Soziodemographische Frage

1. Wie lange existiert die Diagnose SMA bei Ihrem Kind?

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

T0-Interview-Leitfaden für Interviews mit Angehörigen der Kontrollgruppe

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 15 Minuten vorgesehen.
- *Am Telefon:* Sie haben diesen Termin als Wunschtermin genannt. Passt es Ihnen denn gerade immer noch gut?

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Das heutige Gespräch mit Ihnen findet im Rahmen des Forschungsprojekts statt, das die Kinderklinik in Kooperation mit der SEVERA durchführt. Unser aktuelles Teilziel des Forschungsprojekts ist es, zu verstehen wie die medizinische Versorgung bei Ihrem Kind organisiert ist.

Fragen zur Organisation der Versorgung

1. (Sie haben ja bereits berichtet, dass viele Behandelnde an der Versorgung Ihres Kindes beteiligt sind.) Gibt es unter den beteiligten Behandelnden eine Person/Institution, die Ihnen hilft „die Fäden in der Hand zu halten“ (= erster Ansprechpartner)?
 - a. Optional: Wie macht diese Person das genau?
2. Wie erhalten Sie neue Informationen zur SMA?
3. Mit wem besprechen Sie, wenn neue Schritte in der Versorgung Ihres Kindes anstehen?
4. Optional: Gibt es weitere Aspekte, die in Bezug auf die Organisation der Versorgung ihres Kindes wichtig sind?

Fragen zu sekundären Outcomes

1. Mussten Sie sich in der letzten Zeit krankmelden, um die Versorgung ihres Kindes zu gewährleisten?
2. Benötigte Ihr Kind in den letzten 3 Monaten ungeplante medizinische oder therapeutische Leistungen? (Z.B. ungeplanter Arztbesuch, stationäre Behandlung)?
3. Optional: Gab es in der Versorgung ihres Kindes Ereignisse, die man hätte vermeiden können, wenn die Organisation/Koordination besser gewesen wäre?

Soziodemographische Frage

1. Wie lange existiert die Diagnose SMA bei Ihrem Kind?

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

T1-Interview-Leitfaden für Interviews mit Angehörigen zur Verlaufsevaluation des CM (IG)

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 15 Minuten vorgesehen.
- *Am Telefon:* Sie haben diesen Termin als Wunschtermin genannt. Passt es Ihnen denn gerade immer noch gut?

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Das aktuelle Teilziel unseres Forschungsprojekts ist es, zu verstehen wie sich das Case Management auf die Versorgung auswirkt. Dabei ist es wichtig, dass Sie mir ehrliche Rückmeldungen geben, denn nur so können wir das CM verbessern.

Mittlerweile läuft das Case Management jetzt schon ein gutes, halbes Jahr.

Fragen zum CM

1. Innerhalb des Case Managements finden wiederkehrende Telefonate mit der Case Managerin Fr. XX statt. Wie erleben Sie diese Gespräche?
 - a. Optional: Sind Ihnen die Telefonate eine Unterstützung oder eher weniger?
2. Wirkt sich das Case Management (schon) auf die Versorgung Ihres Kindes aus?
 - a. Optional: Gibt es Dinge, die Sie durch das CM anders machen?
 - b. Optional: Gibt es Dinge, die durch das CM einfacher werden (könnten)?

3. Haben Sie Wünsche oder Anregungen für die Entwicklung des Case Managements in den nächsten Wochen/Monaten?

Fragen zu sekundären Outcomes

1. Erhält Ihr Kind eine neue SMA-Therapie (z.B. Risdiplam oder Zolgensma)?
 - a. Hat ihr Kind vorher Spinraza erhalten?
 - b. Seit wann erhält ihr Kind diese neue Therapie?
2. Mussten Sie sich in der letzten Zeit krankmelden, um die Versorgung ihres Kindes zu gewährleisten?
3. Benötigte Ihr Kind in den letzten 3 Monaten ungeplante medizinische oder therapeutische Leistungen? (Z.B. ungeplanter Arztbesuch, stationäre Behandlung)?

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

T1-Interview-Leitfaden für Interviews mit Angehörigen der Kontrollgruppe

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 15 Minuten vorgesehen.
- *Am Telefon:* Sie haben diesen Termin als Wunschtermin genannt. Passt es Ihnen denn gerade immer noch gut?

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Aktuelles Teilziel ist eine Verlaufsmessung der Versorgungssituation ihres Kindes. D.h. hat sich zu unserem letzten Telefonat etwas geändert oder ist alles weitgehend gleichgeblieben. Dazu habe ich, wie immer, ein paar Fragen.

Fragen zur gesundheitlichen und Lebenssituation Ihres Kindes

1. Wie hat sich die gesundheitliche Situation ihres Kindes im letzten halben Jahr verändert?
2. Gab es andere wichtige Veränderungen im Leben Ihres Kindes, wie z.B. Eintritt/Wechsel des Kindergartens?
 - a. Was hat sich durch die Pandemie verändert?

Fragen zur Organisation der Versorgung

1. Hat sich im letzten halben Jahr etwas innerhalb der Versorgung Ihres Kindes geändert?
 - a. Gibt es neue Ansprechpartner?
 - b. Gibt es einen neuen Weg, um Informationen zu SMA zu erhalten?
2. Gibt es weitere Aspekte, die in Bezug auf die Organisation der Versorgung ihres Kindes wichtig sind?

Fragen zu sekundären Outcomes

1. Erhält Ihr Kind eine neue SMA-Therapie (z.B. Risdiplam oder Zolgensma)?
 - a. Hat ihr Kind vorher Spinraza erhalten?
 - b. Seit wann erhält ihr Kind diese neue Therapie?
2. Mussten Sie sich in der letzten Zeit krankmelden, um die Versorgung ihres Kindes zu gewährleisten?
3. Benötigte Ihr Kind in den letzten 3 Monaten ungeplante medizinische oder therapeutische Leistungen? (Z.B. ungeplanter Arztbesuch, stationäre Behandlung)?

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

T2-Interview-Leitfaden für Interviews mit Angehörigen zur Verlaufsevaluation des CM (IG)

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 15 Minuten vorgesehen.
- *Am Telefon:* Sie haben diesen Termin als Wunschtermin genannt. Passt es Ihnen denn gerade immer noch gut?

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Das aktuelle Teilziel unseres Forschungsprojekts ist es, zu verstehen wie sich das Case Management auf die Versorgung auswirkt. Dabei ist es wichtig, dass Sie mir ehrliche Rückmeldungen geben, denn nur so können wir das CM verbessern.

Fragen zum CM

1. Vor ca. 2 Jahren hat das Case Management seine Arbeit aufgenommen. Könnten Sie bitte erzählen, wie Sie die Arbeit des CM aktuell erleben?
 - a. Wie sieht aktuell Ihr Kontakt zur Case Managerin Fr. XX aus?
2. Hat das CM einen Einfluss darauf, wie Sie die Versorgung Ihres Kindes organisieren?
3. Hat das CM einen Einfluss darauf, wie Sie Ihre Aufgaben als Eltern bewältigen/schaffen?
4. Erhält Ihr Kind eine neue SMA-Therapie (z.B. Risdiplam oder Zolgensma)?
 - a. Seit wann erhält ihr Kind diese neue Therapie?

- b. Was hat sich im Zuge des neuen Medikaments innerhalb der Organisation & Koordination der Versorgung Ihres Kindes geändert?
- c. Hat sich dadurch etwas im CM geändert?
- d. Was wünschen Sie sich, wie die Organisation verändert werden sollte? Was könnte das CM dazu beitragen?

Fragen zu sekundären Outcomes

1. Mussten Sie sich in der letzten Zeit krankmelden, um die Versorgung ihres Kindes zu gewährleisten?
2. Benötigte Ihr Kind in den letzten 3 Monaten ungeplante medizinische oder therapeutische Leistungen? (Z.B. ungeplanter Arztbesuch, stationäre Behandlung)?

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

T2-Interview-Leitfaden für Interviews mit Angehörigen der Kontrollgruppe

Begrüßung:

- Hallo Frau/Herr X, vielen Dank, dass Sie sich heute die Zeit genommen haben, um dieses Interview mit mir zu führen.

Vorstellung der eigenen Person:

- Mein Name ist Jana Willems, ich bin Psychologin und arbeite in der Sektion für Versorgungsforschung und Rehabilitationsforschung der Uniklinik Freiburg, kurz SEVERA. Wir arbeiten eng mit der Kinderklinik und Hr. Langer zusammen, mit dem Sie über das Interview gesprochen hatten.

Zeitlichen Rahmen klären:

- Für dieses Interview sind ca. 15 Minuten vorgesehen.
- *Am Telefon:* Sie haben diesen Termin als Wunschtermin genannt. Passt es Ihnen denn gerade immer noch gut?

Aufnahme des Interviews

- Wie Sie bereits im Informationsschreiben gelesen haben, wird dieses Interview per Tonband aufgezeichnet. Sollten Sie Namen oder sonstige personenbezogenen Daten nennen, werden diese gelöscht, sodass niemand einen Rückschluss auf Sie als Person treffen kann. 36 Monate nach Projektende wird die komplette Tonbandaufnahme gelöscht.

Falls Sie damit einverstanden sind, würde ich jetzt die Aufnahme starten.

Einstieg

Das aktuelle Teilziel unseres Forschungsprojekts ist eine Verlaufsmessung der Versorgungssituation Ihres Kindes. D.h. hat sich zu unserem letzten Telefonat etwas geändert oder ist alles weitgehend gleichgeblieben. Dazu habe ich, wie immer, ein paar Fragen.

Fragen zur gesundheitlichen und Lebenssituation Ihres Kindes

1. Wie hat sich die gesundheitliche Situation Ihres Kindes im letzten halben Jahr verändert?
2. Gab es andere wichtige Veränderungen im Leben Ihres Kindes, wie z.B. Eintritt/Wechsel des Kindergartens?

Fragen zur Organisation der Versorgung

1. Hat sich im letzten halben Jahr etwas innerhalb der Versorgung Ihres Kindes geändert?
 - a. Gibt es neue Ansprechpartner?
 - b. Gibt es einen neuen Weg, um Informationen zu SMA zu erhalten?

2. Gibt es weitere Aspekte, die in Bezug auf die Organisation der Versorgung ihres Kindes wichtig sind?

Fragen zu sekundären Outcomes

1. Erhält Ihr Kind eine neue SMA-Therapie (z.B. Risdiplam oder Zolgensma)?
 - a. Hat ihr Kind vorher Spinraza erhalten?
 - b. Seit wann erhält ihr Kind diese neue Therapie?
2. Mussten Sie sich in der letzten Zeit krankmelden, um die Versorgung ihres Kindes zu gewährleisten?
3. Benötigte Ihr Kind in den letzten 3 Monaten ungeplante medizinische oder therapeutische Leistungen? (Z.B. ungeplanter Arztbesuch, stationäre Behandlung)?

Ende des Interviews

- Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und dass Sie so offen mit mir über alles gesprochen haben, das ist sehr wertvoll für uns.
- Alles Gute und einen schönen Tag für Sie!

SMA-C+ - Case-Management

Mein SMA-Profil

Basisbogen

(Stand 23.3.2020)

Dieser Dokumentationsbogen soll einen Überblick über die Versorgungssituation Ihres Kindes geben. Er soll einerseits Ihnen als Familie helfen, alle relevanten Informationen zur Versorgung Ihres Kindes zu bündeln. Andererseits soll er dem Case-Management helfen, auf wichtige Informationen zurückgreifen und sich bei Anfragen rasch informieren zu können.

Der vorliegende Bogen dient als Basisbogen. Das bedeutet, dass die beim Start des Case Managements verfügbaren Informationen eingetragen werden. Wir wissen, dass sich die Versorgungssituation im Lauf der Zeit immer wieder ändert. Diese Veränderungen werden in einem Verlaufsbogen dokumentiert, den wir Ihnen zu einem späteren Zeitpunkt zukommen lassen.

Sie können diesen Bogen alleine oder gemeinsam mit der Case Managerin ausfüllen – wie es Ihnen lieber ist. Beim ersten Telefontermin können Sie dann entweder den ausgefüllten Bogen mit der Case-Managerin durchgehen und besprechen, oder sie füllen ihn gemeinsam während des Telefonats aus. Bitte sagen Sie uns, wie es Ihnen lieber ist.

Name Ihres Kindes mit SMA	Name Elternteil 1	Name Elternteil 2	Geschwister

Behandlungsnetz:

Bitte tragen Sie hier ein, wer an der Behandlung und Versorgung Ihres Kindes beteiligt ist.

Vor Ort	Name	Kontaktdaten	Raum für Kommentare. Gibt es derzeit Handlungsbedarf, wie z.B. Arztwechsel?
niedergelassener Kinderarzt ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Physiotherapie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Logopädie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Ergotherapie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Frühförderung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Pflegedienst ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Provider Beatmung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Orthopädiemechaniker ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
SPZ-Anbindung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>		Worum kümmert sich das SPZ?	

Uniklinik			
Case Management			
Zuständiger Arzt			
Physiotherapie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Kinderorthopädie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Gastroenterologie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Ernährungsberatung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Beatmungsteam der Klinik ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Psychologische Beratung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Sozialrechtliche Beratung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Zusätzliche Unterstützung			
Integrationshilfe/Assistenz ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Weitere Ressourcen, z. B. Großeltern			
Frühe Hilfen			

Krankenkasse ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Zusatz-Krankenversicherung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			

Pflegekasse			
Rentenkasse			

Diagnosen

Bitte tragen Sie hier die Diagnosen Ihres Kindes ein. Sie können sich dazu z.B. an den Angaben in den Arztbriefen orientieren

Diagnose	Datum/Zusatzinfos (z.B. letzte Röntgenkontrolle, u.ä.)	
Pflegegrad		
Behinderungsgrad		

Medizinische Versorgung

Welche Hilfsmittel nutzt Ihr Kind, welche Therapien nimmt es in Anspruch und wie sind Sie mit der aktuellen Versorgung zufrieden?

Das sind die Fragen, um die es in diesem Abschnitt geht.

Art des Hilfsmittels/Therapie	Aktueller Stand	Handlungsbedarf? Ziel/to do (CM/Eltern)	Kein ‚Bedarf‘ im Moment
Beatmung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Letzte Beatmungskontrolle: Aktuelle Probleme?		

PEG ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Aktuelle Probleme? Gewichtsentwicklung okay?		
Orthopädische Fragen? ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Letzte Kontrolle Nächste Verlaufskontrolle?		
Hilfsmittel-Versorgung	Welche Hilfsmittel sind vorhanden? • • • • • Aktuell ausreichend? ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>		
Physiotherapie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Probleme ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>		
Ergotherapie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Probleme ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>		
Logopädie ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Probleme ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>		
Ernährungsberatung ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Probleme ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>		
Rehabilitationsaufenthalt geplant? ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>	Probleme ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>		

Medikamentöse Behandlung

Welche Medikamente nimmt Ihr Kind regelmäßig ein und welcher Arzt ist für die jeweilige Medikation verantwortlich?

Präparat	Therapieverantwortlicher	Handlungsbedarf? Ziel/to do (CM/Eltern)	Kein Handlungsbedarf im Moment

Impfungen

Hier geht es um die „Standardimpfungen“, die von der Ständigen Impfkommission (STIKO) für alle Kinder empfohlen werden als auch um „Indikationsimpfungen“, die bei Kindern mit SMA in vielen Fällen empfohlen werden.

Art der Impfung	Verantwortlicher Arzt	Ziel/to do (CM/Eltern)	Aktuell kein Handlungsbedarf im Moment
STIKO-Standard erfüllt? ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
Influenza? ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			
RSV-Prophylaxe ja <input type="checkbox"/> nein <input type="checkbox"/>			

Pflegedienst/ Assistent/ Schul-/Kindergartenbegleitung

In welchem Umfang nehmen Sie bzw. Ihr Kind Unterstützung beim Besuch von Kindergarten bzw. Schule in Anspruch?

Name	Umfang (h/Woche)	Handlungsbedarf? Ziel/to do (CM/Eltern)	Kein Handlungsbedarf im Moment

Psychologisch/therapeutische Versorgung

Nehmen Sie als Eltern psychologische Beratung in Anspruch? Und wenn ja, wo? (z.B. Psychologen vor Ort oder an der Uniklinik)

Name und Fachrichtung	Umfang (h/Woche)	Handlungsbedarf? Ziel/to do (CM/Eltern)	Kein Handlungsbedarf im Moment

Lebenswelt, Alltag und Schule/Kindergarten

Welchen Kindergarten bzw. welche Schule besucht Ihr Kind? Gibt es weitere Aktivitäten, Vereine u.ä., die in Hinblick auf den Alltag und die Teilhabe Ihres Kindes von Bedeutung sind?

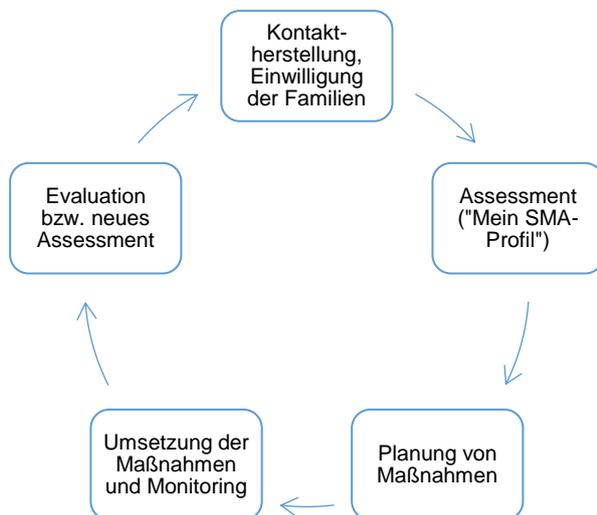
Einrichtung	Umfang (h/Woche)	Handlungsbedarf? Ziel/to do (CM/Eltern)	Kein Handlungsbedarf im Moment

Sonstiges

Anlage 6: Das Case-Management Konzept

Das Case-Management soll dazu beitragen, die Versorgung stärker Patientenorientiert zu gestalten und die Eltern in ihrem Selbst-Management zu stärken. Durch die klinische Erfahrung und medizinische Kenntnis des Case-Managements kann eine leitlinien-getreue Versorgung gewährleistet werden. Außerdem kann bei neu auftretenden Beschwerden, wie z.B. Schluckbeschwerden, eine rasche fachärztliche Vorstellung eingeleitet werden. Auf diese Weise wird ein Beitrag zur Patientensicherheit geleistet, da eine Verschlechterung des Gesundheitszustandes frühzeitig erkannt wird. Durch die kontinuierliche Verfügbarkeit des Case-Managements auch außerhalb geplanter ambulanter Vorstellungen am Muskelzentrum ist es außerdem leichter möglich, auf psychosoziale Belastungen in der Familie einzugehen und bei der Suche nach Entlastungsmöglichkeiten (z.B. Verhinderungspflege) zu helfen.

Die Konzeption des Case Managements orientiert sich an etablierten Modellen und wird auf Grundlage der IST-Analyse SMA-spezifisch modifiziert. Es beinhaltet fünf Phasen.



Neben regelmäßigen Terminen mit Patient*innen und Familien nimmt das Case-Management an regelmäßigen Besprechungen (z.B. monatlich) der Behandler*innen innerhalb der Klinik teil. Dadurch wird der Informationsfluss aufrechterhalten und Entscheidungen können zeitnah getroffen werden. Weitere Aspekte des Case Managements sind in Kapitel 4 dargestellt.