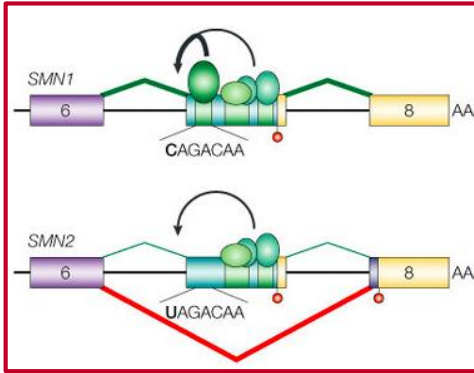


Entwicklung und Evaluation eines Case Managements zur Verbesserung der Versorgungsqualität und Entlastung der Eltern von Patienten mit Spinaler Muskelatrophie 1 und 2

T. Langer, J. Willems, S. Wider, R. Ambs, A. Pechmann, I. Cascante, S. Meyer, E. Farin-Glattacker

Laufzeit: 1.2.2019 – 31.7.2022 (36 + 6 Monate)

Spinale Muskelatrophie



- Autosomal rezessiv, Ursache ist eine homozygote Deletion des Survival Motor Neuron 1 (*SMN1*) Gens auf Chromosom 5
- 2% der Bevölkerung sind heterozygot (Anlageträger) für *SMN1* Deletion (1:50), SMA Inzidenz 1:10.000 Neugeborene
- Symptome durch Untergang von Motoneuronen im Rückenmark
- Muskelschwäche, v.a. der rumpfnahen Muskulatur, aber auch der Extremitäten sowie der Kau- und Schluckmuskulatur
- Komplex-chronische Erkrankung mit vielfältigem Unterstützungsbedarfen



Available online at www.sciencedirect.com

ScienceDirect

Neuromuscular Disorders 28 (2018) 103–115



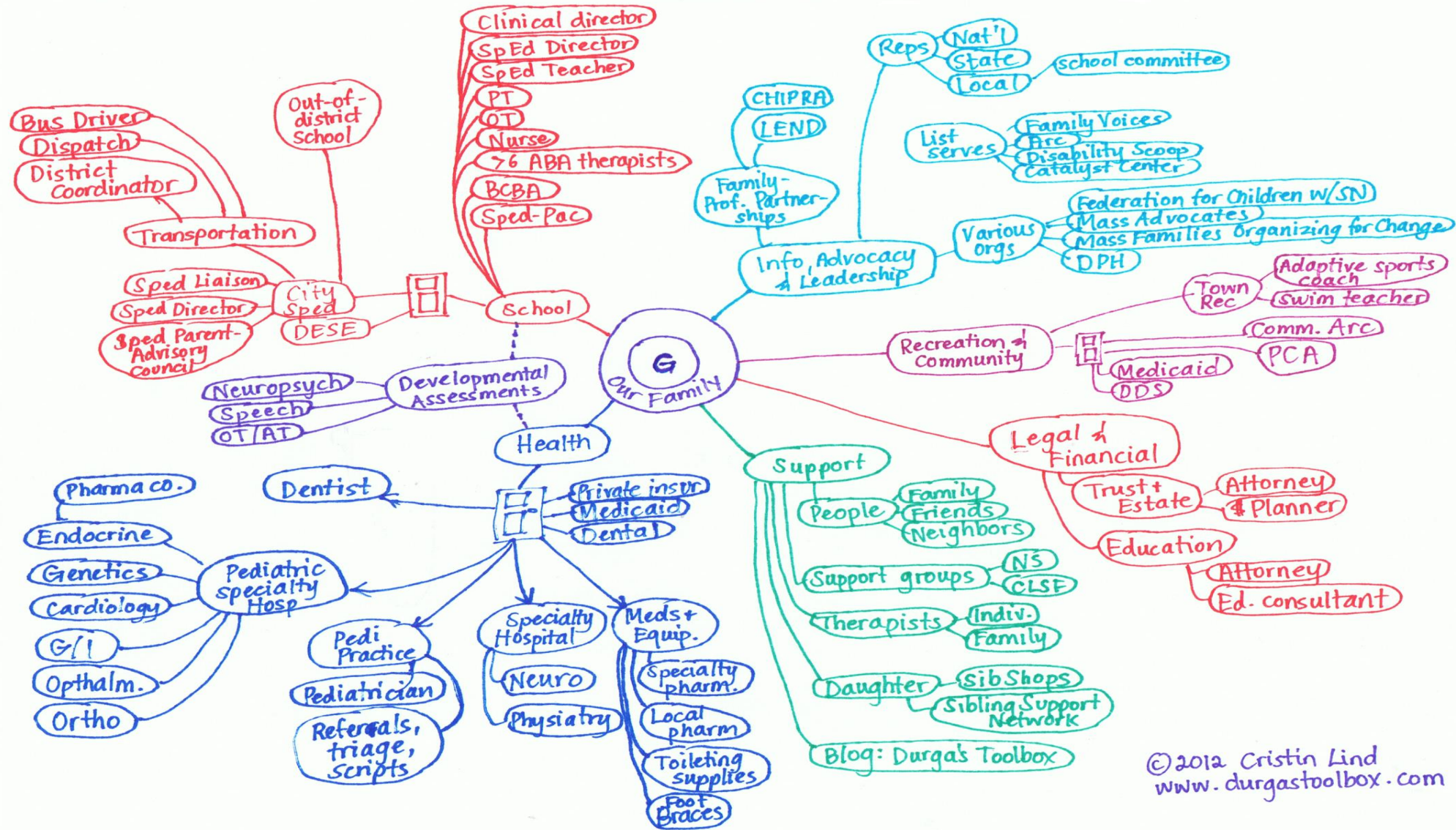
www.elsevier.com/locate/nmd

Diagnosis and management of spinal muscular atrophy: Part 1: Recommendations for diagnosis, rehabilitation, orthopedic and nutritional care

Eugenio Mercuri ^{a,b,1,*}, Richard S. Finkel ^{c,1}, Francesco Muntoni ^d, Brunhilde Wirth ^e,
Jacqueline Montes ^f, Marion Main ^d, Elena S. Mazzone ^{a,b}, Michael Vitale ^g, Brian Snyder ^h,
Susana Quijano-Roy ^{ij}, Enrico Bertini ^k, Rebecca Hurst Davis ^l, Oscar H. Meyer ^m,
Anita K. Simonds ⁿ, Mary K. Schroth ^o, Robert J. Graham ^p, Janbernd Kirschner ^q,
Susan T. Iannaccone ^r, Thomas O. Crawford ^s, Simon Woods ^t, Ying Qian ^u, Thomas Sejersen ^v for
the SMA Care Group

- Medikamentöse Therapie
- Ernährung
- Atemunterstützung/Beatmung
- Physiotherapie
- Hilfsmittelversorgung
- Orthopädische Operationen
- Psychologische Beratung
- Psychosoziale Versorgung

Behandlungskoordination



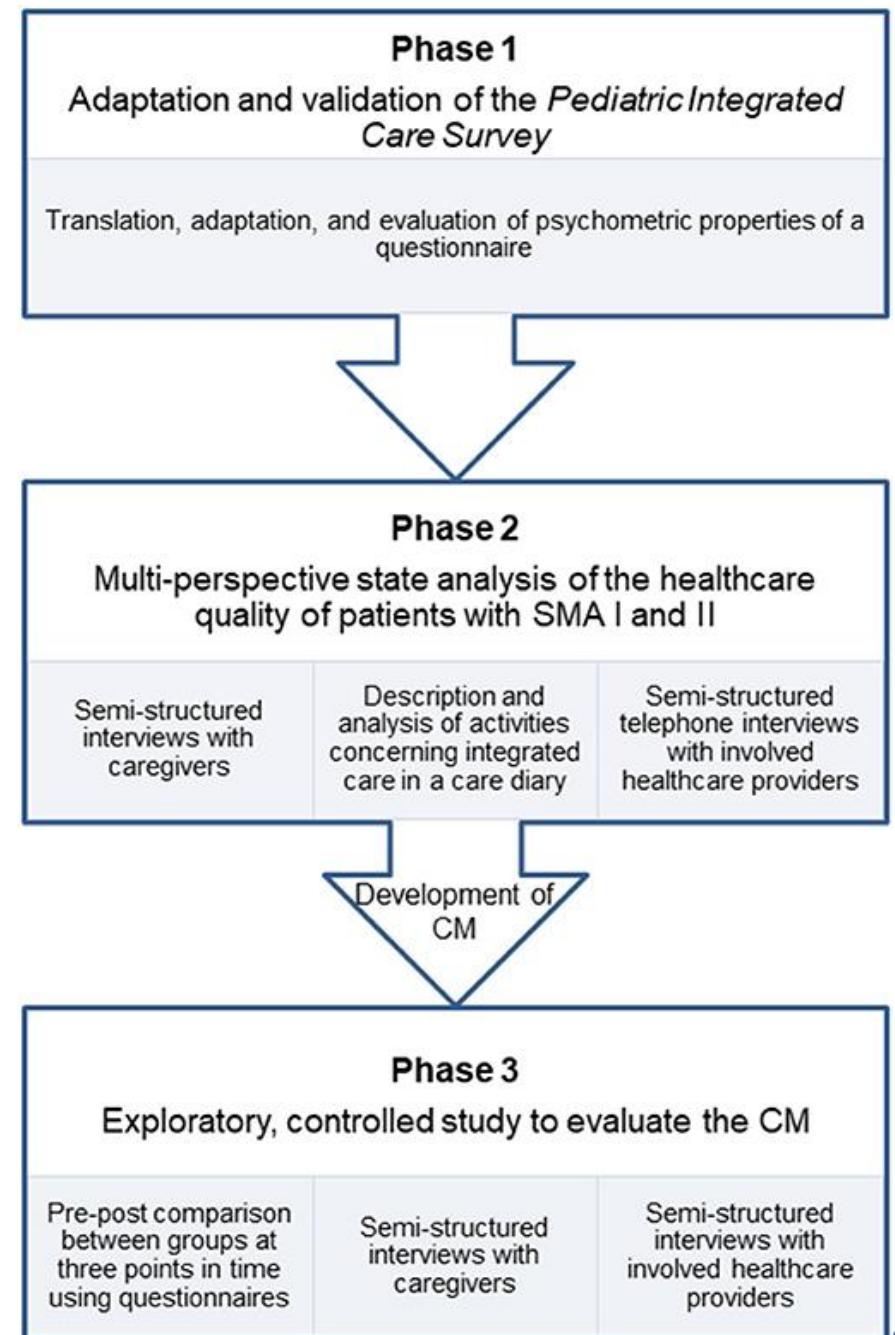
© 2012 Cristin Lind
www.durgastoolbox.com



Evaluation of a Case Management to Support Families With Children Diagnosed With Spinal Muscular Atrophy – Protocol of a Controlled Mixed-Methods Study

Jana Willems^{1*}, Erik Farin-Glattacker^{2†} and Thorsten Langer^{2†}

¹ Section of Healthcare Research and Rehabilitation Research, Faculty of Medicine and Medical Center - University of Freiburg, Freiburg, Germany, ² Department of Neuropediatrics and Muscle Disorders, Center for Pediatrics, Faculty of Medicine, University of Freiburg, Freiburg, Germany



Phase 1: Validierungsstudie Pediatric Integrated Care Survey

- Patient-reported experience measure zur erlebten Qualität der Behandlungsintegration
- Hin- und Rückübersetzung
- Kognitive Interviews (n=10),
- Psychometrische Überprüfung (n=204 Familien mit chronisch erkrankten Kindern)
- 2 Skalen mit "Teamqualität und Kommunikation," & „Auswirkungen auf die Familie“ (Cronbachs α = .84-.89)

Ziniel SI, et al. (2016) Validation of a Parent-Reported Experience Measure of Integrated Care. *Pediatrics* 138.

<https://doi.org/10.1542/peds.2016-0676>

Eremenco SL, Cella D, Arnold BJ (2005) A comprehensive method for the translation and cross-cultural validation of health status questionnaires. *Eval Health Prof* 28:212–232.

Phase 2: Multiperspective state analysis

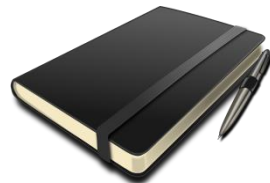
**Eltern von Kindern mit SMA in
Freiburg und Essen**

(21 Personen)



(Telefon-
Interview

+



Betreuungs-
tagebuch

**Niedergelassene
Behandler*innen)**



(Telefon-
Interview



**Qualitative Inhaltsanalyse n. Mayring
7 Ober- und 12 Subcodes**

Entwicklung eines SMA-spez. Case Managements

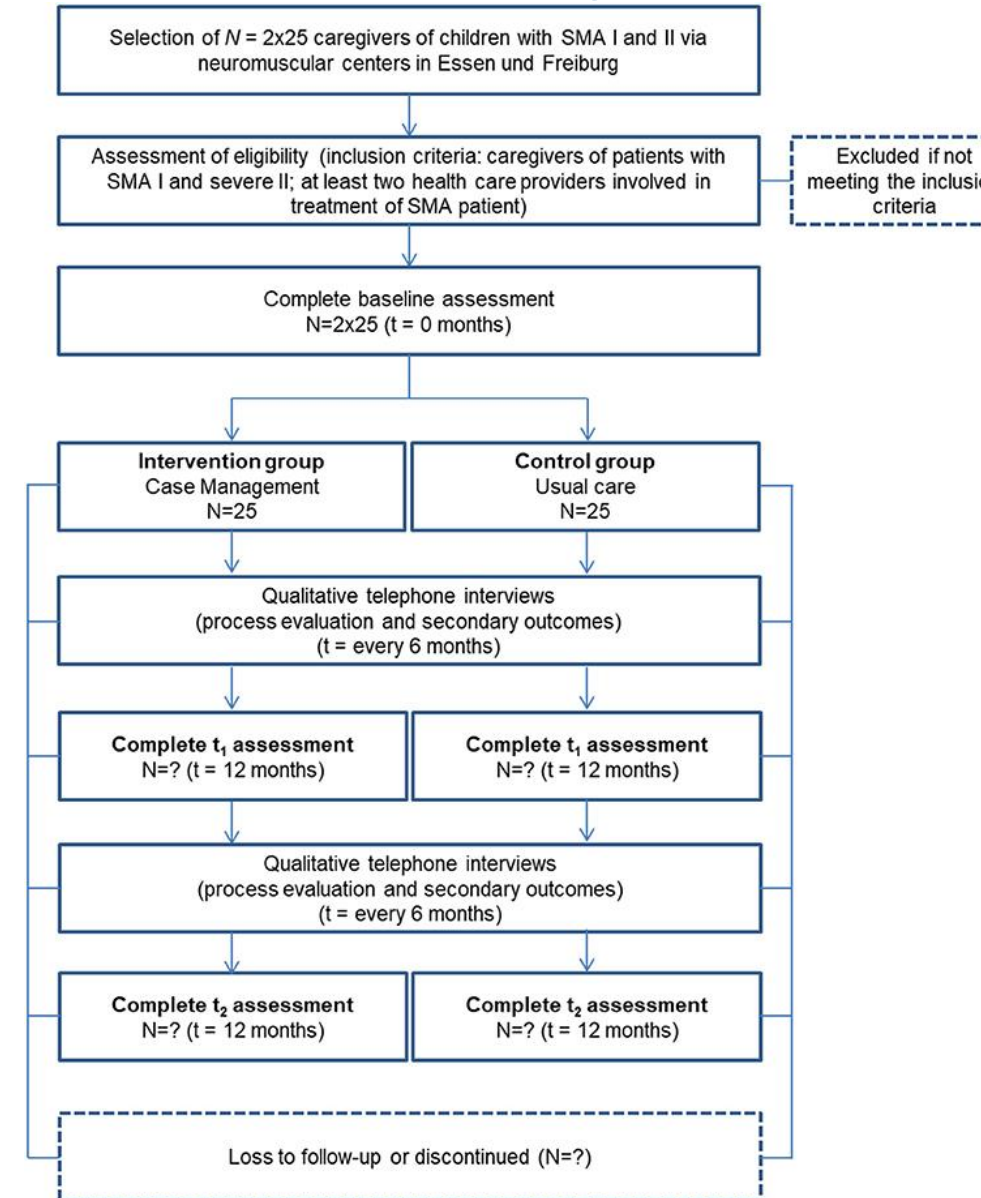
Phase 2: Multiperspective state analysis

Main codes	Sub-codes
Disease and coordination management of the caregivers	
General conditions of care	
Expertise and skills	Expertise and skills of HCP Expertise and skills of caregivers
Coordination structure	Existing coordination mechanisms Perceived coordination needs
Information exchange	Information exchange between caregivers and HCP Information exchange between caregivers (Perceived) information exchange between HCP
Role distribution in care coordination	Role of pediatrician Role of neuromuscular center Role of local care providers Role of SPC/early intervention center Role of caregivers
Quality of relationship	

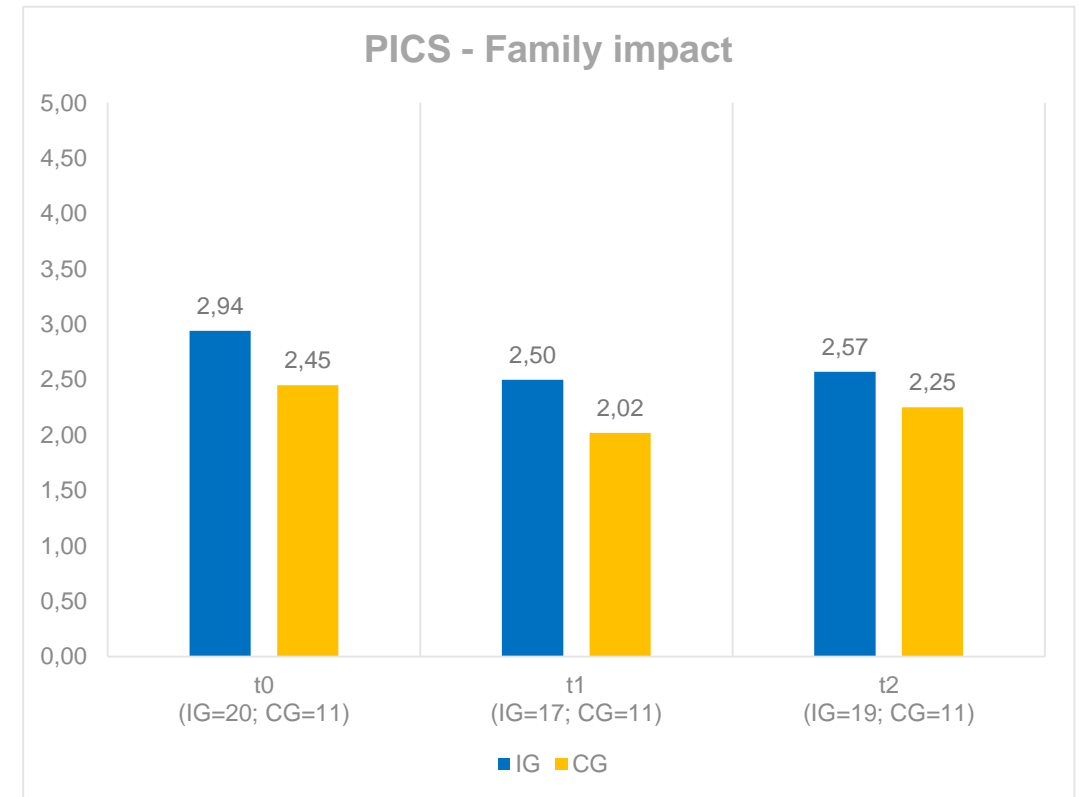
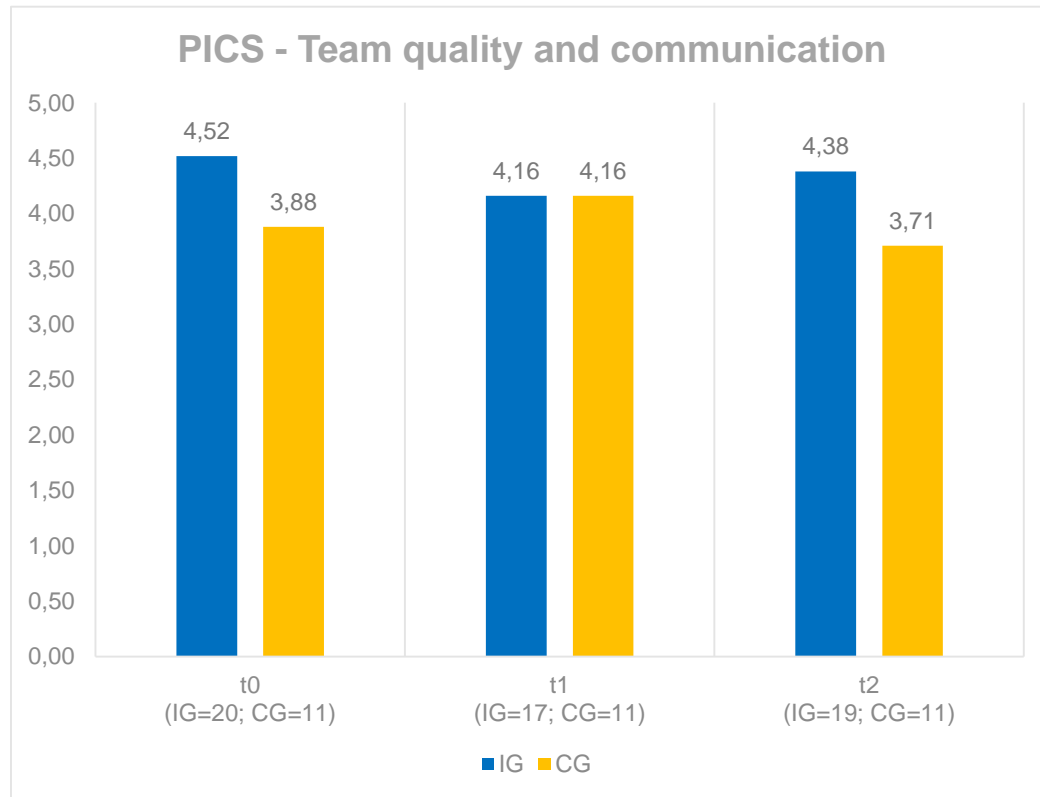
Phase 3: Exploratory controlled evaluation study

Elemente des Case-Managements

- Case-Managerinnen als kontinuierliche Ansprechperson
- Regelmäßige, strukturierte Telefonate mit Familien zur Versorgungssituation
- Organisation von Terminen am ZKJ/UKF
- Vermittlung von Beratungsangeboten
- Regelmäßige, interdisziplinäre Patientenbesprechung am ZKJ



Phase 3: Exploratory controlled evaluation study



Diskussion - Evaluation

- Quantitativ lässt sich eine Überlegenheit der Intervention nicht nachweisen
- Qualitative Daten mit positiven Hinweisen bzgl. Wirksamkeit
- Evaluation komplexer Interventionen bei seltenen Erkrankungen herausfordernd
 - Kleine Fallzahlen mit individuellen Verläufen
 - Heterogene Versorgungslandschaft erschweren Vergleichbarkeit
- Methodischer Anspruch zu früh zu hoch?

Lessons learned

- Innovationsfonds ermöglicht die Entwicklung innovativer Versorgungsangebote
- Zeitliche Latenz zwischen Antragsstellung und Förderbeginn (2 Jahre)
- Voraussetzung am UKF sehr günstig
- Vertraglicher Aufwand überschaubar
- Beteiligung von Patient*innen und Patientenorganisationen hilfreich und spannend