

Evaluatie Doelstellingen van de Neonatale Gehoorscreening 2014

Arjan J. Bosman en André Goedegebure

Platform for Audiological Clinical Testing

April 2017



Inhoudsopgave

1. Inleiding	1
2. Onderzoeksvragen	2
3. Resultaten	3
4. Conclusies	11
5. Aanbevelingen	14
6. Dankwoord	14
7. Referenties	14

Appendices

A.1. Brief ouders/verzorgers voor het overdragen van gegevens	15
A.2. Verklaring CMO Nijmegen	16
A.3. Sjabloon voor het invoeren van gegevens	17

1. Inleiding

Het landelijke programma voor Neonatale Gehoorscreening (NGS) heeft als doel om kinderen met een permanent gehoorverlies van minimaal 40 decibel (dB) aan één of beide oren tijdig op te sporen, zodat bij de kinderen met een dubbelzijdig gehoorverlies vóór de leeftijd van een half jaar gestart kan worden met een passende interventie. De achterliggende gedachte is dat hierdoor de negatieve effecten van een tweezijdig permanent gehoorverlies beperkt kunnen worden (Yoshinaga-Itano, 1999).

Binnen de NGS geldt als streefcijfer dat bij minimaal 95% van de kinderen een interventie binnen vier maanden wordt aangeboden. De *Joint Committee on Infant Hearing* (JCIH, 2007) noemt hiervoor een termijn van zes maanden. Bij een eerdere studie (Korver, 2010) bleek dat bij slechts 50% van de kinderen met een tweezijdig permanent gehoorverlies van minimaal 40 dB binnen een half jaar met hoortoestellen werd begonnen. Recentere cijfers laten een stijgend percentage zien, maar de gegevens zijn niet altijd compleet. Ook is hierbij de inzet van de gezinsbegeleiding niet meegenomen. De vraag is wat de oorzaken zijn voor een vertraging, waardoor tijdige interventie belemmerd wordt. Mogelijk betreft het factoren die te voorkomen zijn, zodat hierop geanticipeerd kan worden.

De huidige studie is een evaluatie van het behalen van de doelstellingen van het neonatale gehoorscreeningsprogramma. Dit betreft vooral de tijdigheid van de interventie(s) bij kinderen met een permanent tweezijdig gehoorverlies na uitval op de neonatale gehoorscreening. Als studiebevolking is het cohort kinderen genomen dat geboren is in 2014 en waarbij een tweezijdig permanent gehoorverlies van minstens 40 dB is vastgesteld. Door middel van dossieronderzoek bij de audiologische centra is getracht een nauwkeurig beeld te verkrijgen van het doorlopen traject bij de kinderen en daarmee mogelijke vertragende factoren op te sporen.

Voor het tijdpad van het screenings- en diagnostisch proces zijn de volgende indicatoren opgesteld met daaraan gekoppelde vastgelegde afspraken. Voor minstens 95% van de kinderen geldt (na correctie van de duur van de zwangerschap in geval van vroeggeboorte):

- Afronding screeningsproces < 42 dagen na de geboorte
- Interval laatste screeningsronde en eerste bezoek AC < 24 dagen
- Afronding diagnostiek < 92 dagen na de geboorte
- Start interventie (streefcijfer NGS) < leeftijd van vier maanden
- Start interventie (richtlijn JCIH) < leeftijd van zes maanden

Deze indicatoren vormen het uitgangspunt voor deze evaluatiestudie.

2. Onderzoeksvragen

De onderzoeksvragen zijn de volgende

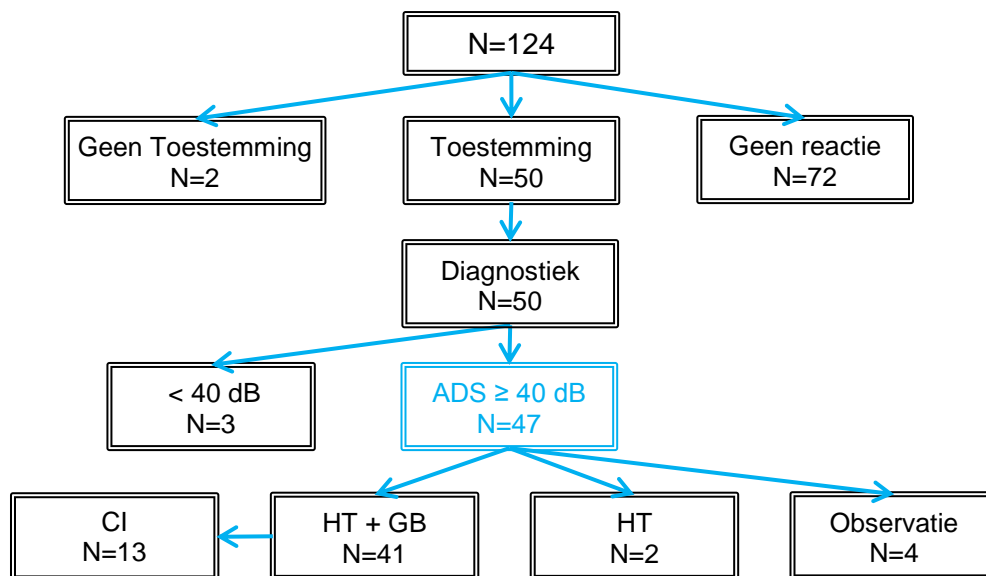
1. Op welke leeftijd werd bij kinderen die verwezen werden vanuit de neonatale gehoorscreening de diagnose bilateraal perceptief gehoorverlies van minimaal 40 dB gesteld (inclusief correctie voor de duur van de zwangerschap)?
2. Wat was de reden van een eventuele vertraging in dit traject (diagnostiek pas na de eerste drie levensmaanden afgerond, hierbij mag worden gecorrigeerd voor de duur van de zwangerschap)?
3. Welk advies kregen de ouders?
4. Wanneer geen hoortoestellen geadviseerd werden, wat was hiervoor de reden?
5. Waarom werd wel of niet gekozen voor gezinsbegeleiding?
6. Wanneer ouders geen hoortoestellen of gezinsbegeleiding wilden, wat was hiervoor de reden?
7. Op welke leeftijd kreeg het kind de hoortoestellen voor het eerst in het oor?
8. Op welke leeftijd van het kind was het eerste contact met de gezinsbegeleiding?
9. Wat was het interval tussen het stellen van de diagnose en de start met hoortoestellen?
10. Wat waren de oorzaken in geval van een vertraging?
11. Wat was het interval tussen het stellen van de diagnose en de start van gezinsbegeleiding?
12. Wat waren de oorzaken in geval van een vertraging?

Onderzoeksmethode

Van het cohort kinderen geboren in 2014 met een permanent gehoorverlies van minimaal 40 dB is middels statusonderzoek retrospectief gekeken naar de tijdigheid van de diverse contactmomenten en de interventie(s). De kinderen werden uit de NSDSK database met diagnostische resultaten geselecteerd op basis van het door een Audiologisch Centrum (AC) gerapporteerde gehoorverlies. De ouders/verzorgers van de geselecteerde kinderen is door de behandelend audioloog schriftelijk toestemming gevraagd voor deelname aan het onderzoek. Bij 50 kinderen reageerden de ouders-/verzorgers positief. Van deze kinderen zijn de gegevens van 12 AC's geanalyseerd door de onderzoeker in nauwe samenwerking met de behandelend audioloog. Door drie AC's zijn de gegevens per (gecodeerde) e-mail opgestuurd en telefonisch besproken.

3. Resultaten

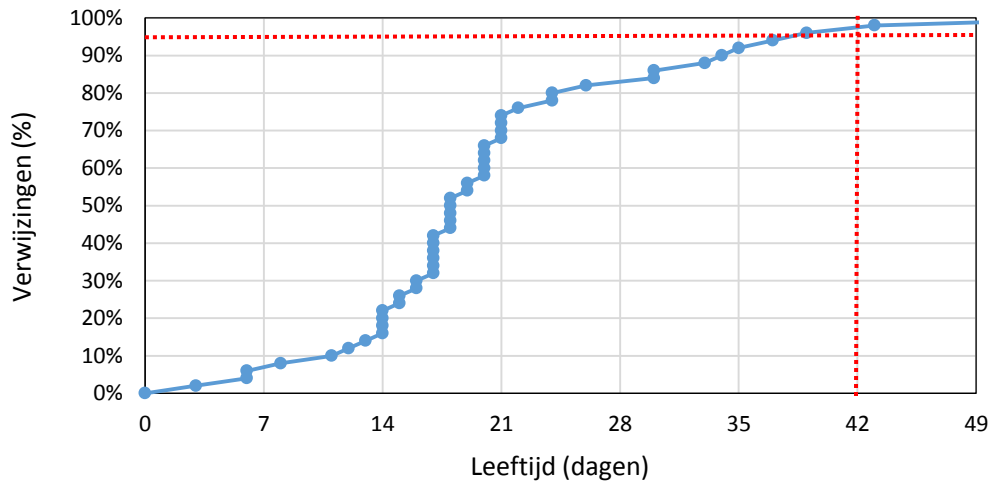
Van de in 2014 geboren kinderen voldeden 124 kinderen aan het insluitingscriterium van beiderzijds (waarschijnlijk) een permanent gehoorverlies van minimaal 40 dB. De resultaten hebben betrekking op 50 kinderen (40% van het cohort) waarvan de ouders toestemming hebben verleend. Het stroomdiagram in Figuur 1 geeft een overzicht van de aantallen kinderen in de diverse fasen van het onderzoek.



Figuur 1. Overzicht van het aantal kinderen per fase van het onderzoek. Van de 124 kinderen uit de neonatale gehoorscreening 2014 die voor dit onderzoek in aanmerking komen hebben ouders van 50 kinderen toestemming gegeven voor deelname aan dit onderzoek. Ouders van twee kinderen hebben toestemming geweigerd en ouders van 72 kinderen hebben niet op de schriftelijke oproep gereageerd. Na het diagnostisch onderzoek op het audiologisch centrum bleken uiteindelijk 47 kinderen beiderzijds een permanent gehoorverlies van minimaal 40 dB te hebben. Bij alle 47 kinderen werd hoortoestelaanpassing (HT) en gezinsbegeleiding (GB) geadviseerd. Bij 41 kinderen werden hoortoestellen aangepast in combinatie met gezinsbegeleiding. Van deze groep zijn uiteindelijk 13 kinderen doorverwezen naar een gespecialiseerd team voor cochleaire implantatie (CI). Bij twee kinderen werden op verzoek van ouders alleen hoortoestellen aangepast. Op verzoek van ouders is bij vier kinderen een afwachtend beleid gevoerd met regelmatige observatie van gehoor en spraak-/taalontwikkeling ('watchful waiting').

De vragen van dit onderzoek betreffen de tijdigheid van de diverse contactmomenten en de redenen voor vertraging op kindniveau. Bij een zwangerschapsduur korter dan 37 weken is op alle contactmomenten voor prematuriteit gecorrigeerd. Bij twee kinderen (een tweeling) werd hiervoor een correctie van 24 dagen toegepast.

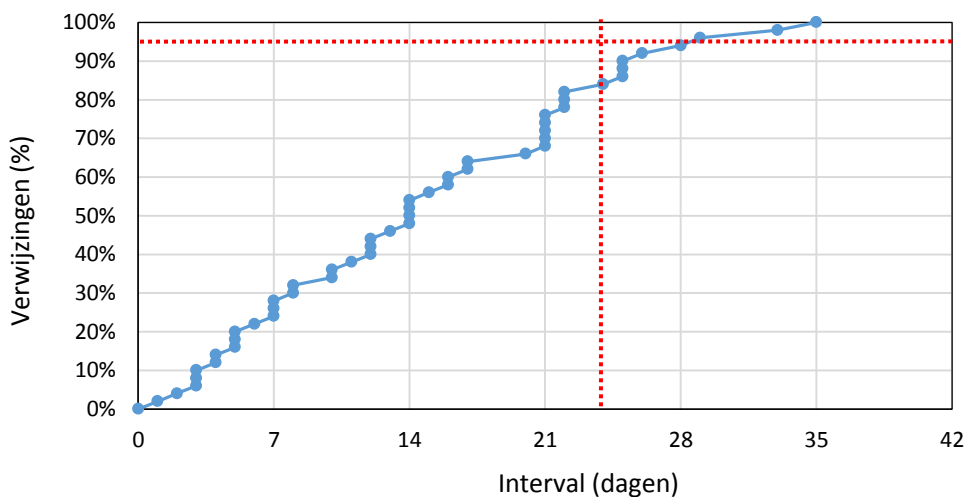
Figuur 2 toont de leeftijd van de kinderen tijdens het laatste meetmoment van de neonatale gehoorscreening.



Figuur 2. De leeftijd in dagen van de 50 kinderen op het laatste meetmoment van de neonatale gehoorscreening. Bij twee kinderen is een (geringe) correctie op de kalenderleeftijd toegepast wegens prematuriteit. De rode verticale stippellijn geeft de indicatorleeftijd van 42 dagen weer en de horizontale stippellijn het streefcijfer van 95%.

Figuur 2 laat zien dat voor dit cohort kinderen de NGS screening bij 50% van de kinderen na 18 dagen (3-58 dagen) na de geboorte was afgerond. Bij twee kinderen (4%), was de screening niet binnen de periode van 42 dagen, de indicator voor afronding NGS-screening, afgerond. De redenen hiervoor zijn niet nagevraagd.

Bij 96% van de kinderen uit dit cohort van 50 kinderen werd de screening binnen de indicatorleeftijd van 42 dagen afgerond. Dit percentage komt zeer goed overeen met de 97,0% tijdigheid uit de TNO rapportage over het totale cohort naar een AC verwezen kinderen in 2014 (vd Ploeg *et al.*, 2016). De termijn waarop de 50 kinderen op het audiologisch centrum werden gezien voor het eerste diagnostische onderzoek staat weergegeven in Figuur 3.



Figuur 3. Het interval uitgedrukt in dagen tussen het laatste onderzoek van de NGS screening en het eerste diagnostische onderzoek op het Audiologisch Centrum. De rode stippellijnen geven het indicatorinterval van 24 dagen en het 95% streefcijfer weer.

Na verwijzing vanuit de NGS screening werden de kinderen na gemiddeld 16 dagen (3-35 dagen; mediaan: 14 dagen) op het AC gezien voor nadere diagnostiek (Figuur 3).

Het snel kunnen inspelen op de vraag naar het opvolgen van de neonatale gehoorscreening vraagt om een flexibele spreekuurplanning van het AC. Hiervoor worden verschillende methoden gehanteerd. Vaak wordt tot maximaal één of twee weken een plek gereserveerd voor dit onderzoek. De audiologen gaven aan dat voor een spoed diagnostisch onderzoek spreekuren verzet worden of zelfs medewerkers speciaal worden opgeroepen. Gelet op de resultaten in Figuur 3 is deze aanpak (grotendeels) succesvol.

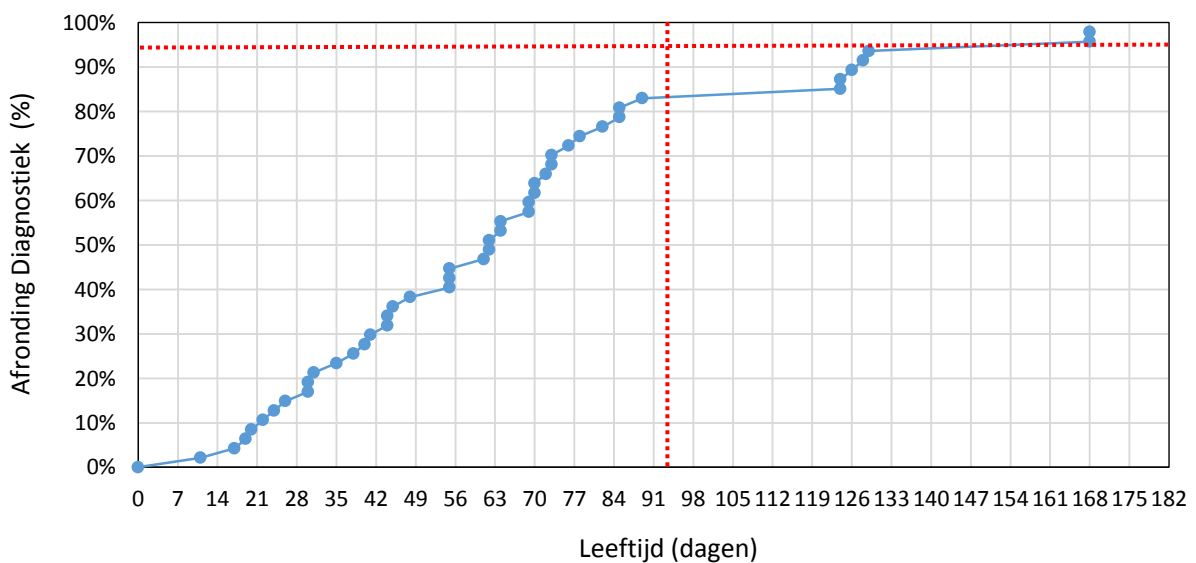
Bij 9 kinderen (18 %) was het interval tussen de laatste NGS screening en het eerste contact op het audiologisch centrum groter dan de NGS indicator van 24 dagen. De redenen hiervoor staan in Tabel I weergegeven. Een belangrijke praktische reden voor een langer interval blijkt de vakantieperiode te zijn. Bij twee kinderen werden afspraken door ouders verzet. Daarnaast vormt de beschikbaarheid van personeel tijdens de vakantieperiode soms een beperkende factor. Bij de twee kinderen met het syndroom van Down werd door de ouders prioriteit gegeven aan andere medische diagnostiek.

Tabel I. Redenen voor een verlengd interval tussen de laatste NGS screening en het eerste diagnostisch onderzoek in het audiologisch centrum. Bij drie kinderen werd de eerste afspraak na een vakantieperiode gemaakt, bij twee kinderen hebben ouders een eerste afspraak afgezegd, er zijn twee kinderen met het syndroom van Down en twee kinderen met een ziekenhuisopname voor andere medische problematiek.

Aantal	Reden
3	Vakantieperiode
2	Afspraak door ouders verzet
2	Syndroom van Down
2	Ziekenhuisopname

Figuur 4 toont de leeftijd waarop bij 47 kinderen definitief een tweezijdig permanent gehoorverlies van minimaal 40 dB werd vastgesteld. Deze diagnostiek werd na gemiddeld 94 dagen (11-805; mediaan: 69 dagen) afgerond. Bij 8 kinderen (8/47 = 17,0 %) was de diagnostiek op de indicatorleeftijd van 92 dagen nog niet afgerond.

De redenen voor afronding van het diagnostische traject buiten de indicatorleeftijd van 92 dagen staan in Tabel II.



Figuur 4. Leeftijd in dagen waarop beiderzijds definitief een permanent tweezijdig gehoorverlies van minimaal 40 dB definitief werd vastgesteld. De indicatorleeftijd van 92 dagen is met de verticale rode stippellijn weergegeven. Het streefcijfer van 95% wordt met de rode horizontale stippellijn aangegeven.

Tabel II. Redenen voor afronding van het diagnostisch traject bij de 47 kinderen met een permanent tweezijdig gehoorverlies van minimaal 40 dB na de indicatorperiode van 92 dagen.

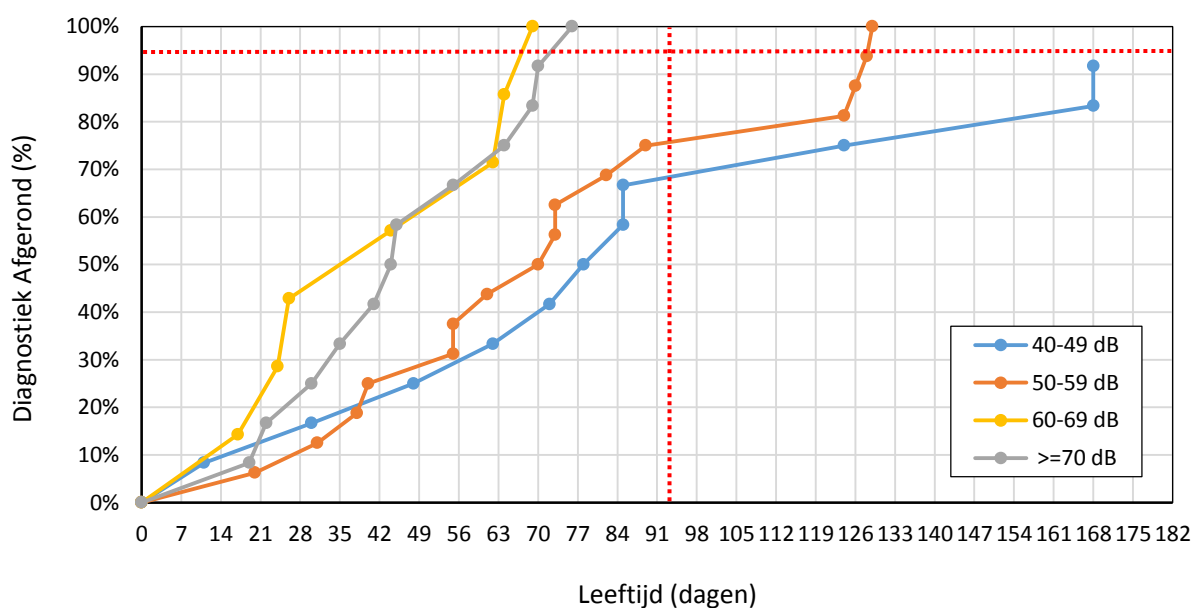
Aantal	Reden
1	Syndroom van Down - gemengd gehoorverlies
4	Herhaling onderzoek op verzoek ouders
2	Otitis media met effusie (OME)
2	Gehoorverlies < 40 dB
1	Ziekenhuisopname

De ouders van vier kinderen wilden een herhaling van de test omdat het kind thuis voldoende op geluid zou reageren en/of omdat de gehoortest geen goed beeld zou geven van het gehoor van hun kind. Bij twee kinderen was er tijdens een vervolgmeting sprake van otitis media met effusie (OME), waardoor meerdere vervolgmetingen noodzakelijk waren.

Bij drie van de vijftig kinderen werd aan één zijde een gehoorverlies kleiner dan 40 dB gevonden. Bij deze kinderen werd de diagnostiek op een leeftijd van respectievelijk 61, 109 en 209 dagen afgerond. Bij het kind met een traject van 109 dagen speelde otitis media een rol. Bij het kind met een traject van 209 dagen werd na constatering van eenzijdig gehoorverlies het onderzoek op verzoek van ouders pas op een leeftijd van 9 maanden werd herhaald.

Van het totale cohort van 50 kinderen in deze studie was op de indicatorleeftijd van 92 dagen de diagnostiek bij 40 kinderen (80 %) afgerond. Dit getal komt goed overeen met de 83,4 % tijdigheid van het afronden van de diagnostiek bij alle in 2014 naar een AC verwezen kinderen (TNO, 2016).

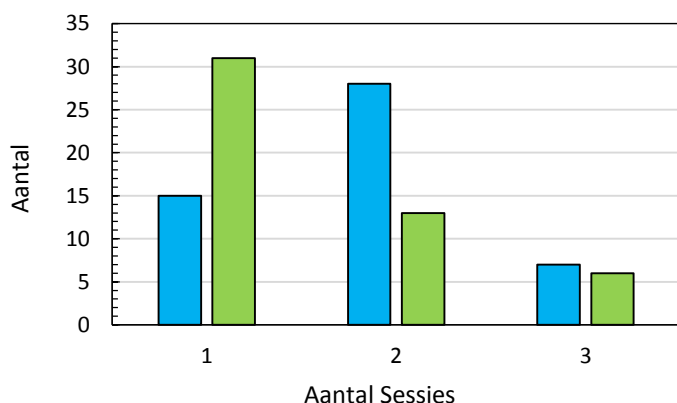
In Figuur 5 staat de leeftijd bij afronding van het diagnostische traject opgesplitst naar de grootte van het uiteindelijk gevonden gehoorverlies weergegeven. Bij kinderen met een verlies van 60-69 dB en minimaal 70 dB is de uitslag van het diagnostische traject sneller duidelijk dan bij de kinderen met een kleiner gehoorverlies.



Figuur 5. Leeftijd na vaststelling een permanent gehoorverlies voor een gehoorverlies van 40-49 dB, 50-59 dB, 60-69 dB en minimaal 70 dB. De indicatorleeftijd van 92 dagen is met de rode verticale stippellijn weergegeven. Het streefcijfer van 95% wordt met de rode horizontale stippellijn aangegeven.

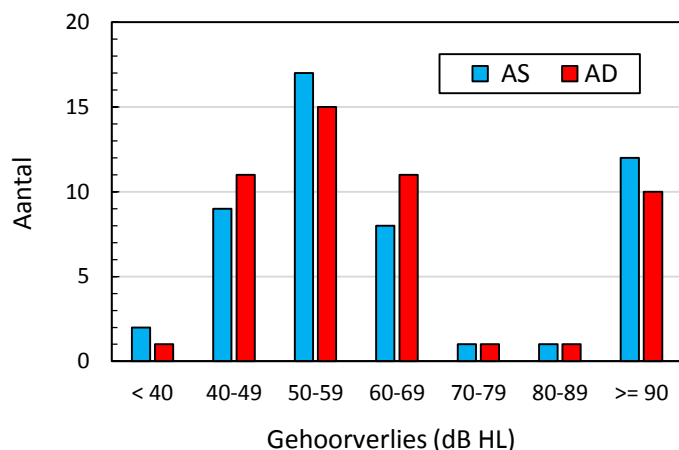
In Figuur 6 staat het aantal benodigde meetsessies voor definitieve vaststelling van het gehoorverlies in blauw weergegeven. Bij 15 kinderen was de grootte van het permanente gehoorverlies na één sessie duidelijk, bij 28 kinderen na twee sessies en bij 7 kinderen na drie sessies.

In deze figuur is in groen ook een retrospectieve interpretatie van het aantal benodigde sessies aangegeven. Na de eerste meet sessie bleek bij 31 kinderen de grootte van het permanente gehoorverlies al duidelijk, na twee sessies bij 13 kinderen en na drie sessies bij 6 kinderen. Hierbij dient te worden aangetekend dat een extra meet sessie zeer waardevol kan zijn voor de acceptatie van het gehoorverlies door de ouders.



Figuur 6. Het aantal meet sessies benodigd voor het vaststellen van de grootte van het permanente gehoorverlies. In blauw het werkelijke aantal gebruikte sessies en in groen een retrospectieve herinterpretatie van deze gegevens.

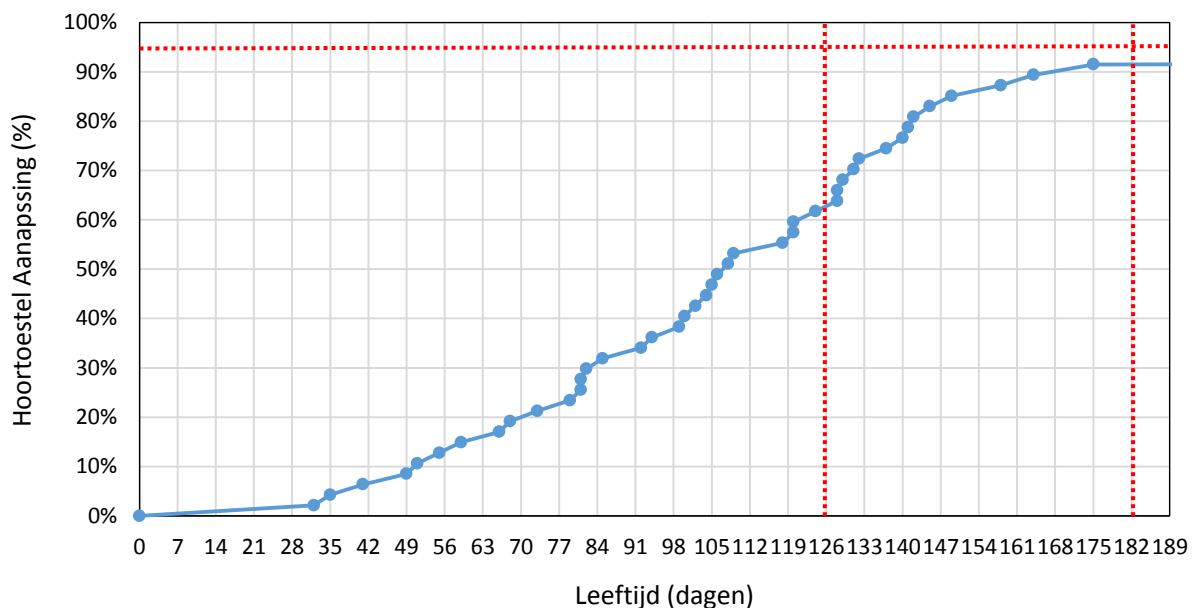
Figuur 7 toont het uiteindelijk gevonden permanente gehoorverlies met intervallen van 10 dB voor de linkerzijde in blauw en voor de rechterzijde in rood. Aan beide zijden is het gemiddelde gehoorverlies 62 dB (bereik: 20-100 dB). Bij vrijwel alle kinderen is het verlies symmetrisch. Bij 3 kinderen werd aan één zijde een gehoorverlies kleiner dan 40 dB geconstateerd.



Figuur 7. De grootte van het permanente gehoorverlies aan linker- en rechterzijde in intervallen van 10 dB. Het verlies voor de linkerzijde is in blauw, aan de rechterzijde in rood aangegeven.

Alle audiologen gaven aan dat na constatering van een permanent gehoorverlies naar de KNO-arts wordt doorverwezen, waarbij het kind meestal op korte termijn gezien kan worden. Bij de academische centra is dit een vanzelfsprekendheid omdat de diagnostische onderzoeken veelal worden afgestemd op de spreekuren van de KNO-arts. Bij één perifeer AC wordt ieder kind altijd direct voorafgaand aan het audiometrische onderzoek gezien door de KNO-arts.

De drie kinderen met aan één zijde een gehoorverlies kleiner dan 40 dB worden in de volgende analyses niet meer meegenomen. Van de 50 kinderen resteren dus 47 kinderen, waarvan bij 43 kinderen een hoortoestel werd aangepast. De leeftijd waarop de hoortoestellen werden aangepast staat in Figuur 8 uitgezet.



Figuur 8. Leeftijd in dagen waarop de hoortoestellen werden aangepast. Bij vier van de 47 kinderen werd op verzoek van de ouders afgezien van hoortoestellen. De rode verticale stippellijnen zijn de 4-maands en 6-maands indicatoren van respectievelijk het NGS programma en de JCIH. Het streefcijfer van 95% wordt met de rode horizontale stippellijn aangegeven.

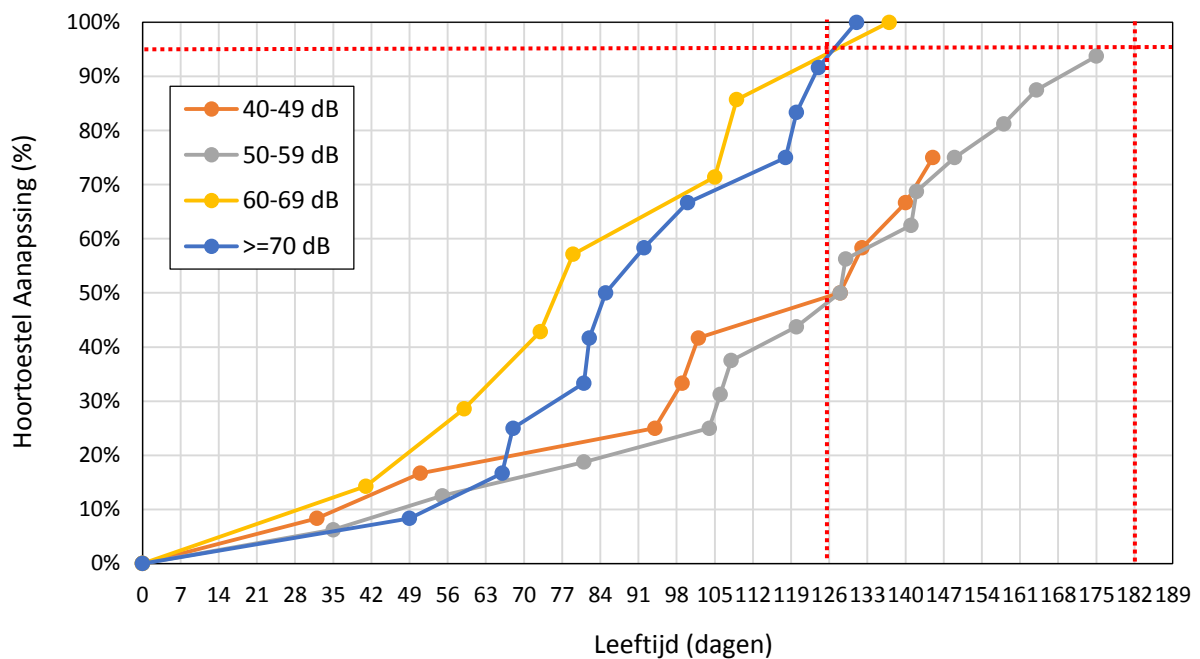
Na gemiddeld 103 dagen (32-175; mediaan: 105 dagen) werden de hoortoestellen aangepast. Bij de 4-maands indicatorleeftijd van het NGS-programma zijn bij 29 kinderen (62 %) hoortoestellen aangepast en bij de 6-maands JCIH indicatorleeftijd is dit toegenomen tot 43 (91 %).

Bij 4 kinderen zagen ouders af van het aanpassen van hoortoestellen (zie Tabel III). Bij twee kinderen met een perceptief verlies van 40 dB aan het beste oor gaven ouders aan dat hun kind in de thuissituatie voldoende reageerde op geluid. Bij één kind met een perceptief verlies van 50 dB aan het beste oor wilden de ouders de spraak-/taalontwikkeling afwachten voordat zij een besluit wilden nemen over het aanpassen van hoortoestellen. Ouders van één kind met het syndroom van Down en een gemengd gehoorverlies met een perceptieve component van 40 dB aan het beste oor kozen ervoor het beloop van het gehoorverlies af te wachten.

Tabel III. Redenen ouders voor afzien van het gebruik van hoortoestellen.

Aantal	Reden
1	Syndroom van Down - gemengd gehoorverlies
1	Afwachten van spraak-/taalontwikkeling
2	Ouders menen dat kind voldoende hoort

Figuur 9 laat zien dat bij kinderen met de grote verliezen van 60-69 dB en vanaf 70 dB in het algemeen eerder hoortoestellen worden aangepast dan bij kinderen met de kleinere verliezen van 40-49 dB en 50-59 dB.



Figuur 9. Leeftijd in dagen waarop hoortoestellen bij een gehoorverlies van 40-49 dB, 50-59 dB, 60-69 dB en minimaal 70 dB werden aangepast. Bij drie kinderen met aan het beste oor een verlies van 40 dB en één kind met een verlies van 50 dB werden geen hoortoestellen aangepast. De rode verticale stippellijnen zijn de 4-maands en 6-maands indicatoren van respectievelijk het NGS programma en JCIH. Het streefcijfer van 95% wordt met de rode horizontale stippelijijn aangegeven.

Om nog een keer globaal beeld te krijgen van het gehele traject tot aan de hoortoestelaanpassing, volgt hieronder een overzicht van de mediane doorlooptijden (in dagen) bij het aanpassen van hoortoestellen:

- traject NGS screening 18 (N=50)
 - interval screening - diagnostiek AC 14 (N=50)
 - traject diagnostiek 31 (N=50)
 - voorschrift hoortoestellen 2 (N=47)
 - aanpassen hoortoestellen 41 (N=43)
- Totale traject 108 dagen

Het is het duidelijk dat de duur van het gehele traject tot aan de interventie, een optelsom is van afzonderlijke delen. Hierin valt op dat naast het diagnostiektraject, ook de tijd tussen het voorschrift van de hoortoestellen en het daadwerkelijk aanpassen relatief lang is.

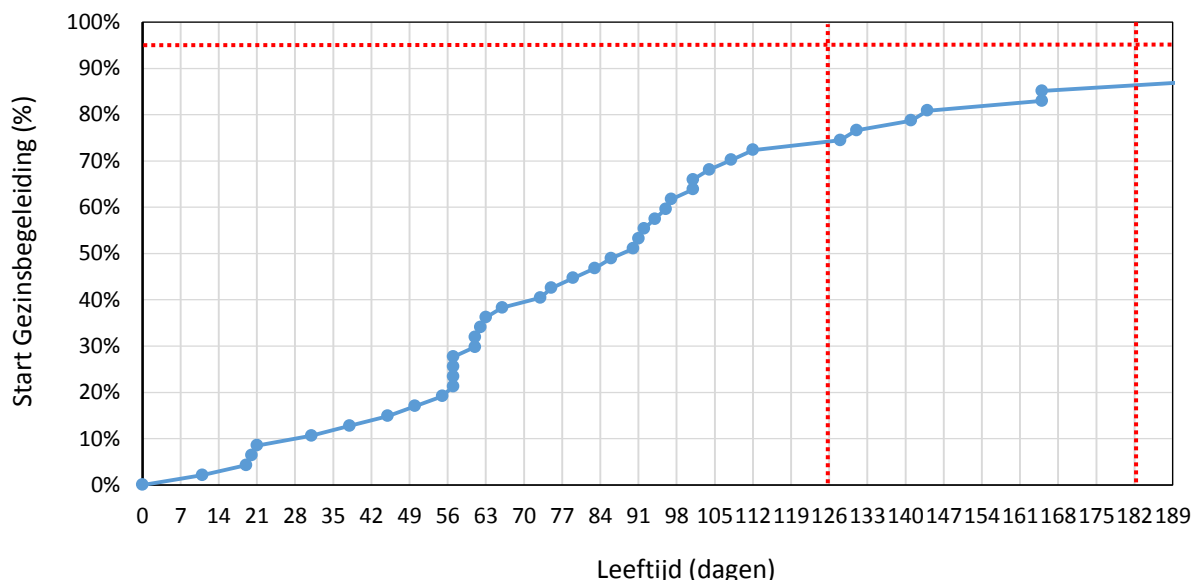
Gezinsbegeleiding

Aan alle ouders van de 47 kinderen met een permanent gehoorverlies vanaf 40 dB werd ook gezinsbegeleiding ('vroegbegeleiding') geadviseerd. Bij zes kinderen werd door de ouders van gezinsbegeleiding afgezien (zie Tabel IV). Dit betrof één kind met het syndroom van Down en een gemengd gehoorverlies dat al begeleid werd vanuit een gespecialiseerde Down-polikliniek. Eén kind was langdurig opgenomen in een ziekenhuis voor neurologische problemen. Bij één kind was de moeder zelf slechthorend en al uitgebreid met het omgaan met slechthorendheid bekend. Bij drie kinderen gaven ouders aan de spontane spraak-/taalontwikkeling van hun kind af te willen wachten.

Tabel IV. Redenen voor het afzien van gezinsbegeleiding.

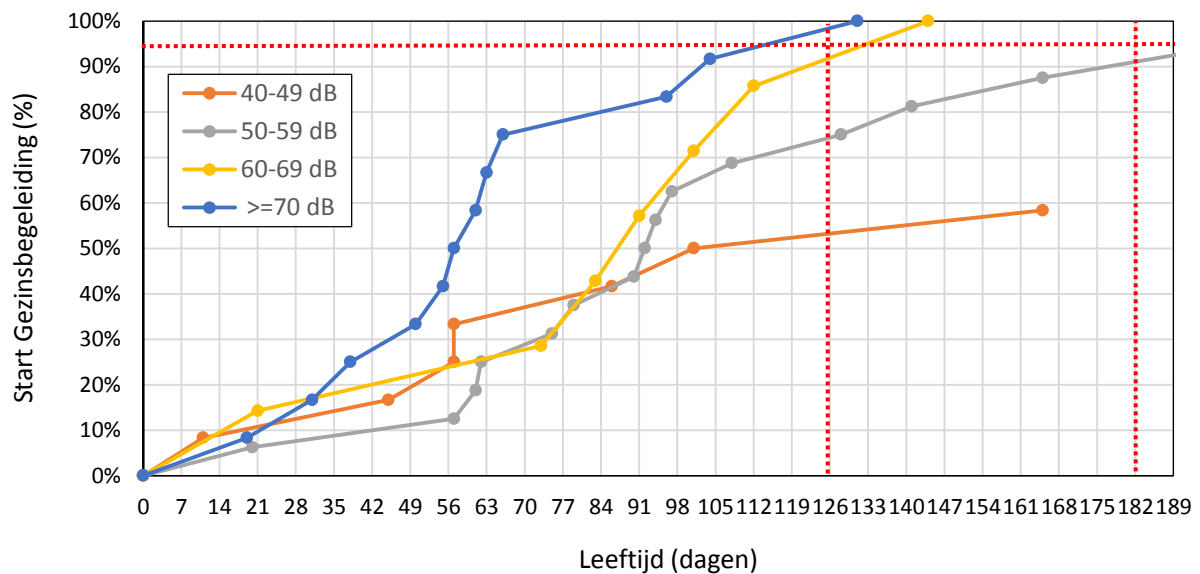
Aantal	Reden
1	Syndroom van Down – begeleiding vanuit Down-poli
1	Langdurige ziekenhuisopname
1	Moeder uitgebreid bekend met slechthorendheid
3	Afwachten van spontane (spraak-/taal) ontwikkeling

Het moment van het eerste contact met de gezinsbegeleiding staat in Figuur 10 weergegeven. Het eerste contact met de gezinsbegeleiding was op een leeftijd van gemiddeld 123 dagen (11-804 dagen; mediaan 91 dagen). Op de indicatorleeftijden van 4 en 6 maanden hadden respectievelijk 34 (72 %) en 40 (85 %) van de 47 kinderen met een permanent gehoorverlies van minimaal 40 dB contact gehad met de gezinsbegeleiding.



Figuur 10. De leeftijd in dagen tijdens het eerste contact met de gezinsbegeleiding. Bij zes kinderen werd door de ouders afgezien van gezinsbegeleiding. De rode verticale stippellijnen zijn de 4-maands en 6-maands indicatorleeftijden van respectievelijk het NGS programma en JCIH. Het streefcijfer van 95% wordt met de rode horizontale stippelijijn aangegeven.

In Figuur 11 staat de leeftijd van het eerste contact met de gezinsbegeleiding uitgesplitst naar de grootte van het gehoorverlies. In het algemeen geldt dat dit eerste contact eerder plaatsvindt bij een groter dan bij een kleiner gehoorverlies. Bij 5 kinderen met een gehoorverlies van 40-49 dB en één kind met een verlies van 50-59 dB werd door de ouders afgezien van gezinsbegeleiding. De redenen hiervoor staan in Tabel IV weergegeven.



Figuur 11. De leeftijd in dagen tijdens het eerste contact met de gezinsbegeleiding uitgesplitst naar de kinderen met een gehoorverlies van 40-49 dB, 50-59 dB, 60-69 dB en minimaal 70 dB. Bij 5 kinderen met een gehoorverlies van 40-49 dB en één kind met een verlies van 50-59 dB werd door de ouders afgezien van gezinsbegeleiding. De rode verticale stippellijnen zijn de 4-maands en 6-maands indicatorleeftijd van respectievelijk het NGS programma en de JCIH. Het streefcijfer van 95% wordt met de rode horizontale stippelijijn aangegeven.

4. Discussie

Het doel van de uitgevoerde studie was om in het follow-up traject van de neonatale gehoorscreening mogelijk vertragende factoren te identificeren die kunnen leiden tot het niet tijdig starten met hoortoestellen en/of gezinsbegeleiding. Hiervoor is er een analyse uitgevoerd op de groep neonaten die in 2014 gescreend is en waarbij uiteindelijk bilaterale slechthorendheid ≥ 40 dB HL is aangetroffen. Van de 50 kinderen voor wie toestemming van ouders verkregen werd voor inclusie in de studie, bleken uiteindelijk 47 kinderen aan het gestelde criterium m.b.t. het gehoorverlies te voldoen. Hieronder volgt een overzicht van de behaalde percentages per indicator:

- Afronding screeningsproces < 42 dagen na de geboorte 48/50 = 96 %
- Interval laatste screening en bezoek AC < 24 dagen 41/50 = 82 %
- Afronding diagnostiek < 92 dagen na de geboorte 39/47 = 83 %
- Start interventie (doelstelling NGS) < leeftijd van vier maanden 34/47 = 72 %
- Start interventie (richtlijn JCIH) < leeftijd van zes maanden 43/47 = 91 %

Voor de meeste kinderen blijkt dat het traject tijdig doorlopen wordt en is er blijkbaar geen sprake van significante vertraging. De doelstellingen van het screeningsprogramma worden echter niet volledig gehaald, gezien de streefwaardes van minimaal 95%. Vooral het starten met een interventie (hoortoestellen en/of gezinsbegeleiding) vóór een leeftijd van 4 maanden blijkt in een substantieel aantal gevallen nog niet behaald te worden. Hieronder zullen voor de afzonderlijke onderdelen in het traject de belangrijkste redenen voor vertraging besproken worden.

Screenings- en Diagnostiektraject

De gehoorscreening werd bij 48 van de 50 kinderen (96 %) binnen 42 dagen afgerond. De redenen voor een vertraagde afronding van de gehoorscreening bij deze 2 kinderen zijn niet bekend, maar binnen het kader van deze studie minder relevant omdat het hier vooral het follow-up traject betreft. Het bevestigt in ieder geval dat bij de screening weinig tijd verloren wordt.

Voor het interval tussen de laatste screeningsronde en het eerste diagnostische onderzoek op het AC geldt dat 41 kinderen (82 %) binnen de indicatorperiode van 24 dagen wordt gezien. Een verlengd interval heeft vooral een praktisch reden (zie Tabel I). De verschillende vakantieperiodes blijken hiervoor een belangrijke oorzaak. Dit is bij zowel ouders als bij de AC's een punt van aandacht. Enerzijds zijn er in vakantieperiodes minder spreekuren beschikbaar, anderzijds zijn ouders dan ook minder goed beschikbaar.

Het diagnostische traject op het AC wordt bij 40 van de 50 kinderen (80 %) binnen de streefwaarde van 92 dagen afgerond. Dit betekent dat bij een substantieel aantal kinderen de gestelde streefwaarde niet gehaald wordt (N=9). De oorzaken voor een verlenging van dit traject staan in Tabel II. De belangrijkste reden van verlenging van het diagnostiektraject is het inlassen van extra onderzoek(en) op verzoek van de ouders. Het is de vraag in hoeverre dit voor de diagnosestelling echt noodzakelijk is. Uit Figuur 6 blijkt dat de eerste meting vaak al een goed beeld geeft van het uiteindelijke gehoorverlies. Bevestiging van het resultaat kan bijdragen aan een betere acceptatie bij ouders en is misschien zelfs noodzakelijk om ouders te overtuigen van de noodzaak van hoortoestellen. Maar als dit ten koste gaat van een tijdige interventie, is het de vraag hoe noodzakelijk zo'n extra stap in het traject is en of dit in bepaalde gevallen voorkomen kan worden. Bij de grotere verliezen was de uitslag na het eerste diagnostische onderzoek vaak al duidelijk. Een tweede diagnostisch onderzoek werd vooral gepland ter bevestiging van de eerdere resultaten en/of ter overtuiging van de ouders. Gelukkig blijkt uit figuur 5 dat bij alle gehoorverliezen van 60 dB HL de diagnostiek tijdig is afgerond en er dus geen sprake is van substantiële vertraging. Episoden van otitis media met effusie (OME) vertraagden bij een klein aantal kinderen met een langduriger diagnostische traject de definitieve bepaling van de grootte van het permanente gehoorverlies. Een

andere oorzaken van vertraging is comorbiditeit en/of ziekte van het kind. De vertraging ten gevolge van deze factor is begrijpelijk en lijkt moeilijk te voorkomen.

Interventie

Een tijdige interventie is een van de belangrijkste doelen van het screeningsprogramma. We moeten echter helaas constateren dat het percentage van 72% voor de indicator “interventie gestart voor 4 maanden” ruim onder de streefwaarde van 95% ligt. Dit betreft interventie door middel van hoortoestellen of inzet van gezingsbegeleiding. Als alleen naar de aanpassing van hoortoestellen gekeken wordt, ligt het percentage nog iets lager. Van de 47 geïnccludeerde kinderen waarbij uiteindelijk een bilateraal gehoorverlies werd vastgesteld van 40 dB of meer, werd op de leeftijd van 4 maanden bij “slechts” 29 kinderen een hoortoestel aangepast (62%). Tussen een leeftijd van 4 maanden en 6 maanden neemt het percentage gelukkig snel toe, 91% is voorzien van een hoortoestel vóór een leeftijd van 6 maanden. Voor de inzet van gezingsbegeleiding is de tijdigheid ook niet optimaal. Op de leeftijd van 4 maanden hebben 34 kinderen (72 %) contact met de gezingsbegeleiding gehad. Bij een leeftijd van 6 maanden geldt dit voor 40 kinderen (85 %).

Net als bij de diagnostiek, lijkt de mate van gehoorverlies een belangrijke factor te spelen bij het niet halen van de doelstelling qua tijdigheid, zo blijkt uit figuur 9. Zo geven ouders bij kinderen met een kleiner gehoorverlies (≤ 50 dB) regelmatig aan dat het kind op omgevingsgeluid reageert en achten ze daarom geen interventie nodig. In vier gevallen is het zelfs helemaal niet gekomen tot een hoortoestelaanpassing, ondanks dat de gehoorverliezen hier wel aanleiding toe gaven. Ook als de status van het gehoorverlies niet direct duidelijk wordt, creëert dit bij ouders verwarring die voor vertraging kan zorgen. Interventie door de gezingsbegeleiding kan hierbij een waardevolle aanvulling zijn, bijvoorbeeld door extra uitleg over de noodzaak van het horen van zachte geluiden/klanken voor het goed op gang komen van de spraak-taal ontwikkeling. Echter, directe inzet van gezingsbegeleiding blijkt juist ook voor matige gehoorverliezen niet triviaal te zijn (zie figuur 11), ondanks dat het wel altijd werd aangeboden. Gezingsbegeleiding wordt mogelijk nog te vaak gezien als noodzakelijke interventie in geval van ernstige slechthorendheid/doofheid en als een meer optionele interventie bij matige slechthorendheid.

De eerder besproken vertraging in het vaststellen van de diagnostiek draagt uiteraard bij aan het later starten met een interventie. Ouders willen graag zekerheid over het gehoorverlies en de noodzaak voor hoortoestellen, voordat hiermee gestart wordt. Dit is begrijpelijk, maar de vertraging in het diagnostiektraject leidt hierdoor automatisch tot een verlate start met hoortoestellen en kan daarmee een negatief effect hebben op de hoorontwikkeling van het kind. Het is belangrijk dat dit besef ook bij behandelaars goed aanwezig is. Wellicht is het in sommige gevallen mogelijk toch alvast te starten met het hoortoesteltraject, ondanks dat er nog enige onduidelijkheid is over de mate van gehoorverlies.

Naast meer inhoudelijke factoren, speelt ook de planning en logistiek een rol in het behalen van de tijdigheidscriteria. Een kort interval tussen het afronden van de neonatale gehoorscreening en de eerste afspraak voor audiologische diagnostiek vraagt om een flexibele spreekuurplanning van het AC. Figuur 3 laat zien dat dit in veel gevallen lukt. De planning rond en in de vakantieperiodes blijft wel een aandachtspunt. De tijdsinvestering per afspraak en daarmee de aanpak voor de diagnostiek verschilt echter sterk tussen de verschillende centra. Dit varieert van anderhalf uur tot een compleet dagdeel voor het eerste diagnostische onderzoek. Het voordeel van een grote initiële tijdsinvestering is dat de diagnostiek vrijwel altijd tot een duidelijke uitspraak leidt. Dit kan op termijn wellicht tijd besparen. Maar er lijken verschillende planningsmodellen toepasbaar te zijn, die allen leiden tot voldoende snelle doorloop. Tijdens de audiologenbijeenkomst in januari 2017 is er even gediscussieerd over de verschillen in werkwijze tussen de centra. Kennisuitwisseling op dit gebied kan mogelijk de efficiëntie op landelijk niveau vergroten.

Een ander aandachtspunt is de relatief lange tijd tussen het voorschrijven van hoortoestellen en de daadwerkelijk eerste aanpassing (mediaan van 42 dagen). Het maken van een afspraak bij een

audicien en het maken van oorstukjes neemt natuurlijk enige tijd in beslag, maar wellicht is het toch mogelijk de tijd tot de eerstvolgende afspraak op het AC wat te verkorten. Het is juist de optelling van verschillende kleine tijdsverliezen die gezamenlijk een risico kunnen vormen voor het tijdig starten met de hoortoestellen. Elke mogelijke winst is daarom belangrijk.

Beperking studie

Van het cohort van kinderen geboren in 2014 met beiderzijds een gehoorverlies van minimaal 40 dB hebben ouders van 50 kinderen toestemming gegeven voor deelname aan dit onderzoek.

Door het ontbreken van de toestemming van een relatief groot aantal ouders/verzorgers (74 van de 124 kinderen = 60 %) zijn de resultaten van het onderzoek mogelijk niet geheel representatief voor de hele doelgroep. De huidige resultaten voor tijdigheid van de derde screeningsronde (96%) en afronden van de diagnostiek (80%) komen echter overeen met die voor het totale cohort kinderen verwezen vanuit de NGS in 2014 van respectievelijk 97,0% en 83,4% (Van der Ploeg *et al.*, 2016). Dit geeft aan dat deze studie op deze punten een goede afspiegeling vormt van het gehele cohort van 104 kinderen. Het is echter goed mogelijk dat onder de ouders die geen toestemming gegeven hebben er zich relatief meer probleemgevallen bevinden, bijvoorbeeld door een verschil in inzicht met het AC. Daarnaast hebben niet alle AC's kinderen aan kunnen leveren, deels ook door de beperkte toestemming van ouders. Ook hierdoor kan een niet geheel representatief beeld geschetst zijn.

5. Conclusies

In de huidige studie zijn de doelstellingen van het neonatale gehoorscreeningsprogramma geëvalueerd, waarbij vooral gekeken is naar mogelijke onderliggende oorzaken die tot vertraging leiden. Dit is gebeurd aan de hand van een cohort kinderen uit 2014 waarbij na neonatale gehoorscreening een bilateraal gehoorverlies van 40 dB of meer is geconstateerd is. Hierbij is door middel van statusonderzoek bij audiologische centra uitgebreid onderzoek uitgevoerd naar het doorlopen traject tot en met inzet van de interventie.

Uit het onderzoek blijkt dat in de meeste gevallen tijdig diagnostiek wordt gepleegd en interventie wordt ingezet. Echter, op enkele punten worden de doelstellingen nog niet volledig gehaald. Dit betreft de indicatoren tijdige inzet van interventie voor een leeftijd van 4 maanden en het afronden van diagnostiek na 92 dagen. De mate van gehoorverlies blijkt hierbij de meest bepalende factor, bij kinderen met kleinere verliezen treedt de meeste vertraging op. Dit is gekoppeld aan meer onzekerheid over aard en grootte van het gehoorverlies en twijfel over het nut van een snelle interventie. Daarnaast spelen vertragende factoren ten gevolge van logistiek een rol, hier is mogelijk beter op te anticiperen door de AC's. Als laatste blijken co-morbiditeit en/of ziekte bij het kind vertragende, maar moeilijk beïnvloedbare factoren.

6. Aanbevelingen

Op basis van voorgaande bevindingen valt te overwegen de streefwaarde van 4 maanden voor kleinere gehoorverliezen op te schuiven naar 6 maanden. Bij de bijeenkomst van de beroepsgroep in januari 2017 was er een voorkeur om ook bij kleinere verliezen aan te sturen op interventie voor 4 maanden, zolang ouders in het proces 'meegenomen' kunnen worden. Gezinsbegeleiding kan hierbij een belangrijke rol spelen, dus gezinsbegeleiding zou juist ook bij lichtere verliezen ingezet moeten worden.

Voor gemengde, perceptieve hoog-frequente en vlakke kleinere gehoorverliezen zijn er bij ouders veel onduidelijkheden over nut en noodzaak van een vroegtijdige interventie. Het verstrekken van specifieke informatie over de consequenties van een klein gehoorverlies op met name het incidentele luisteren lijkt een nuttige aanvulling op het huidige voorlichtingsmateriaal. Het laten horen van simulaties van het gehoorverlies met gefilterde geluiden kan hierbij eveneens nuttig zijn. De rol van gezinsbegeleiding kan sterker worden aangezet, met name bij de acceptatie van een gehoorverlies tijdens de eerste fase(n) van het diagnostische traject. Ook kan de rol van de gezinsbegeleiding sterker worden benadrukt bij het accepteren van en omgaan met de kleinere gehoorverliezen van 40-50 dB.

De termijn tussen het voorschrijven en het daadwerkelijk aanpassen van de toestellen zou in overleg met de betrokken audiciens verkort kunnen worden. Mogelijk kan ook tijdwinst worden behaald door eerder met hoortoestellen te starten, voordat de grootte van het gehoorverlies al geheel duidelijk is. Een goede logistiek van de audiologische zorg is essentieel voor een snelle interventie. Dit vraagt zowel om een vaste planning van specifieke spreekuren voor deze doelgroep als om flexibiliteit voor het snel in kunnen spelen op vragen voor diagnostiek en/of revalidatie. Vakantieperioden met een kleinere personele inzetbaarheid zijn hierbij een aandachtspunt.

7. Dankwoord

De uitvoering van dit onderzoek was alleen mogelijk dankzij de zeer welwillende medewerking van alle collega audiologen. Dank voor jullie bereidheid de gegevens op te zoeken en met ons te delen en, niet in het minst, voor de gastvrijheid.

8. Referenties

- JCIH (2007). "JCIH year 2007 position statement: Principles and guidelines for early hearing detection and intervention programs". www.asha.org/uploadedfiles/jcih-executive-summary.pdf
- Korver AMH (2010). "Impact and benefits of early hearing screening". Proefschrift Universiteit Leiden
- Van der Ploeg K, Van der Pal S en Verkerk P (2016). "Neonatale gehoorscreening door de jeugd-gezondheidszorg – Monitor over 2015". TNO rapport TNO/CH 2016 R11657.
- Yoshinaga-Itano C (1999). "Benefits of early intervention for children with hearing loss" *Otolaryngol Clin North Am* 32 (6): 1089-102.

Appendices

A.1. Brief aan ouders/verzorgers voor het overdragen van gegevens

Hieronder een voorbeeld van de brief zoals die is verstuurd vanuit de meeste Audiologische Centra.

Geachte ouder/verzorger van <patiënt>,

Na verwijzing vanuit het landelijke gehoorscreeningsprogramma werd bij uw kind <patiënt> in ons Audiologisch Centrum een gehoorverlies gemeten.

De gehoorscreening bij pasgeborenen heeft als doel om kinderen met een blijvend gehoorverlies zo vroeg mogelijk op te sporen. Dan kan de behandeling ook zo snel mogelijk beginnen. Dat is belangrijk voor de taalspraakontwikkeling van een kind.

Medewerkers van het consultatiebureau en van het Audiologisch Centrum werken hard om dit doel te bereiken. We weten echter niet of dit altijd lukt. Daarom willen we dat onderzoeken.

We willen u vragen om uw kind mee te laten doen aan dit onderzoek. Met uw kind zelf gaat niets gebeuren. Het gaat alleen om de gegevens over het gehoorverlies, hoe snel het is opgespoord en het starten met hoortoestellen en/of gezinsbegeleiding. Als er vertraging in het traject is opgetreden, dan wordt uitgezocht hoe dat komt en of we daar iets aan kunnen en/of moeten doen.

Het RIVM (Rijksinstituut voor Volksgezondheid en Milieu) voert de regie over dit programma. Zij heeft aan de Stichting Platform Audiological Clinical Testing (PACT) gevraagd dit onderzoek uit te voeren. De gegevens worden door de Stichting PACT anoniem geanalyseerd en zijn dan niet herleidbaar naar uw kind.

Hierbij vragen wij u toestemming of wij de gegevens van <patiënt> voor dit landelijke onderzoek over mogen dragen aan de Stichting PACT.

Voor vragen over het onderzoek kunt u contact opnemen met ondergetekende, uitvoerder van het onderzoek.

Wij danken u bij voorbaat voor uw medewerking,

Met vriendelijke groet,

dr.ir. A.J. Bosman
klinisch-fysicus/audioloog

A.2. Oordeel CMO Nijmegen: onderzoek niet WMO-plichtig

Titel: Evaluatie programma neonatale gehoorscreening
Dossiernummer: 2016-2548

Geachte heer Bosman,

In antwoord op uw brief ontvangen d.d. 11 mei 2016 bericht ik u namens de CMO als volgt.

In artikel 1 WMO wordt het toetsplichtige medisch-wetenschappelijke onderzoek omschreven als onderzoek waarin personen aan bepaalde handelingen worden onderworpen of aan hen een bepaalde gedragwijze wordt opgelegd. Zoals dit het geval is bij elke omschrijving roept ook deze omschrijving vragen met betrekking tot de afbakening ervan op. De CMO is gewoon bij de vraag of een medisch-wetenschappelijk onderzoek onder de WMO valt primair aansluiting te zoeken bij het doel van de WMO: het beschermen van (kwetsbare) proefpersonen tegen gezondheidsrisico's of andere (noemenswaardige) bezwaren die verbonden kunnen zijn aan het deelnemen aan onderzoek. Zijn die er niet, dan concludeert de CMO dat het onderzoek niet onder de WMO valt, ofschoon het zo kan zijn dat proefpersonen in een onderzoek aan bepaalde handelingen worden onderworpen of aan hen een bepaalde gedragingen worden opgelegd.

Welnu, de commissie is op grond hiervan van oordeel dat uw onderzoek niet onder de WMO valt en dat voor de uitvoering ervan dan ook geen positief oordeel van een erkende toetsingscommissie vereist is.

In uw onderzoek wordt geen (nader) gebruik gemaakt van lichaamsmateriaal. Dit betekent dat met inachtneming van de Code Goed Gebruik voor de uitvoering van het onderzoek ook geen goedkeuring vereist is van de CMO in haar hoedanigheid van lokale toetsingscommissie.

Dit oordeel is tot stand gekomen na bestudering van de volgende documenten:

C Projectbeschrijving, ontvangen d.d. 11 mei 2016

E Brief ouders/verzorgers voor het overdragen van gegevens, ontvangen d.d. 04 mei 2016

Het bovenstaande laat onverlet dat u bij uw onderzoek de toepasselijke (rechts)regels, bijvoorbeeld ter bescherming van de privacy, in acht moet nemen. Dit betekent bijvoorbeeld in beginsel dat personen die niet behoren tot de kring van degenen die rechtstreeks betrokken zijn bij de behandeling van de betreffende patiënten, niet bevoegd zijn niet-gecodeerde patiëntgegevens in te zien. Voor zover het onderzoek ook zal worden uitgevoerd in andere centra, doet u er verstandig aan per ziekenhuis na te gaan of er (anders dan op dit moment nog het geval is in het Radboudumc) een lokale toetsingsprocedure geldt voor uw onderzoek en wat het lokale beleid is met betrekking tot bijvoorbeeld het nader gebruiken van gegevens voor wetenschappelijk onderzoek.

Ik vertrouw erop u met deze e-mail van dienst te zijn.

Met vriendelijke groet,

Prof. dr. E. van Leeuwen, voorzitter

Concernstaf Kwaliteit en Veiligheid
Commissie Mensgebonden Onderzoek
commissiemensgebondenonderzoek@radboudumc.nl
T (024) 3613154

Radboud universitair medisch centrum Geert Grooteplein (route 627), Nijmegen
www.radboudumc.nl
www.cmoregio-a-n.nl

A.3. Sjabloon voor het vastleggen van de gegevens

Hieronder staat het sjabloon weergegeven waarop de ruwe gegevens werden ingevoerd voor diagnostiek, hoortoestel aanpassing en gezinsbegeleiding.

Diagnostiek

AC	Naam	Geboorte datum	Meting 1			Meting 2			Meting 3			Reden Vertraging
			Datum	Test(s)	Uitslag	Datum	Test(s)	Uitslag	Datum	Test(s)	Uitslag	

Hoortoestellen (HT)

AC	Naam	Geboorte datum	Duur Zwangerschap	Laatste screening	Diagnostiek		Verlies (dB)		Revalidatie Advies		HT (J/N)	Reden geen hoortoestellen	Start Htn		Reden vertraging	
					Start	Eind	AS	AD	Datum	Advies			Voorschrift	Aanpassing		

Gezinsbegeleiding c.q. vroegbegeleiding (GB)

AC	Naam	Geboorte datum	Gezinsbegeleiding J/N	Reden geen gezinsbegeleiding	Datum contact	Reden vertraging