



Eindverslag project **Coping met Usher**



Auteurs

Eline Heppe, Vera Knapen, Ingrid Beijaard, Gracia Tham, Elvira Belt & Saskia Damen

Datum

november 2023

Het project 'Coping met Usher' is een samenwerkingsverband tussen Koninklijke Kentalis, Geestelijke Gezondheidszorg en Maatschappelijke Dienstverlening (GGMD) en Rijksuniversiteit Groningen (RUG). Leden van de klankbordgroep waren: J. de Punder (ervaringsdeskundige), dr. R. Pennings (KNO-arts Radboudumc), L. van der Mark (ervaringsdeskundige), E. Belt (ervaringsdeskundige), G. Tham (ervaringsdeskundige), D. Groenefelt (GGMD), B. van den Biggelaar (Koninklijke Kentalis), M. Bröker (Koninklijke Kentalis). I. van Zadelhoff (Koninklijke Kentalis) was betrokken als projectleider.

Het project 'Coping met Usher' werd gefinancierd vanuit 1) het programma Verbindend Vernieuwen door de Samenwerkende Instellingen Auditieve Communicatieve Sector (SIAC) en 2) Deelkracht binnen het programma Expertisefunctie Zintuigelijke Gehandicapten van ZonMw (subsidienummer 637003001).

Copyright © 2023, Koninklijke Kentalis en Deelkracht
Koninklijke Kentalis, Postbus 7, 5270 BA Sint-Michielsgestel
www.kentalis.nl en www.Deelkracht.nl

Aan de totstandkoming van deze uitgave is de uiterste zorg besteed. Voor informatie die nochtans onvolledig of onjuist is opgenomen, aanvaarden auteur(s) en uitgever geen aansprakelijkheid. Voor eventuele verbeteringen van de opgenomen gegevens houden zij zich gaarne aanbevolen.

Behoudens de in of krachtens de Auteurswet van 1912 gestelde uitzonderingen mag niets uit deze opgave worden verveelvoudigd, opgeslagen in een geautomatiseerd gegevensbestand, of openbaar gemaakt, in enige vorm of op enige wijze, hetzij elektronisch, mechanisch, door fotokopieën, namen of op enige andere manier, zonder voorafgaande schriftelijke toestemming van de auteurs.

Bij vragen over de uitgave kunt u contact opnemen met mevr. dr. E.C.M. Heppe:
e.heppe@kentalis.nl

Verwijzen naar dit document? Gebruik dan:

Heppe, E., Knapen, V., Beijaard, I., Tham, G., Belt, E. & Damen, S. (2023).
Eindverslag project Coping met Usher. Koninklijke Kentalis & Deelkracht.



Inhoudsopgave

1	Inleiding	4
2	Projectteam en klankbordgroep	6
3	Doelen en aanpak: drie projectfases	8
4	Aanpak Oriëntatiefase (eerste fase)	10
5	Deelstudie 1: Methode van de literatuurstudie (eerste fase)	11
6	Deelstudie 2: Methode van de interviewstudie (eerste fase)	14
7	Deelstudie 3: Methode van de focusgroepstudie (eerste fase)	17
8	Deelstudie 4: Methode van de enquêtestudie (eerste fase)	20
9	Deelstudie 5: Methode van de inventarisatiestudie (eerste fase)	23
10	Deelstudie 6: Methode van de expertstudie (eerste fase)	25
11	Deelstudie 1: Resultaten van de literatuurstudie (eerste fase)	28
12	Deelstudie 2: Resultaten van de interviewstudie (eerste fase)	31
13	Deelstudie 3: Resultaten van de focusgroepstudie (eerste fase)	33
14	Deelstudie 4: Resultaten van de enquêtestudie (eerste fase)	38
15	Deelstudie 5: Resultaten van de inventarisatiestudie (eerste fase)	43
16	Deelstudie 6: Resultaten van de expertstudie (eerste fase)	44
17	Aanpak productiefase (tweede fase)	49
18	Resultaten productiefase (tweede fase)	52
19	Aanpak uitvoeringsfase (derde fase)	56
20	Resultaten Uitvoeringsfase (derde fase)	63
21	Conclusie en discussie	68
22	Bronnenlijst	75



1 Inleiding

Het syndroom van Usher is een erfelijke aandoening die zich kenmerkt door gehoorverlies vanaf de geboorte en een degeneratie van het zien en horen gedurende het latere leven. De diagnose van het syndroom van Usher kan sinds 2015 door genetisch onderzoek voor het eerste levensjaar van het kind worden vastgesteld. In het verleden werd het syndroom meestal pas gediagnosticeerd in de tienerjaren of adolescentie wanneer iemand met het syndroom van Usher voor het eerst visuele problemen ervaarde. Het syndroom van Usher heeft ernstige gevolgen voor het dagelijkse functioneren, het welbevinden en de participatie in de maatschappij (o.a. Evan & Baillie, 2022; Högner, 2015; Wahlqvist et al., 2013, 2016). Door het progressieve karakter ervaren mensen met het syndroom van Usher regelmatig stress en worden zij geconfronteerd met gevoelens van rouw en verlies. Ondersteuning bij het leren omgaan met de beperking is daarom van groot belang voor mensen met het syndroom van Usher. Uit het onderzoek 'Blind Vertrouwen' bleek dat mensen met het syndroom van Usher en hun ouders nauwelijks ondersteuning hebben ontvangen nadat de diagnose was gesteld. Ook geen ondersteuning bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. (Van Zadelhoff & Damen, 2018; Damen et al., 2023).

Uit een inventarisatie bij organisaties binnen de Zintuigelijk Gehandicaptenzorg sector (ZG-sector) bleek dat meerdere organisaties aan mensen met een zintuiglijke beperking vormen van ondersteuning bieden die zich richten op het leren omgaan met de zintuiglijke beperking. Deze vormen van ondersteuning worden ook wel psycho-educatie genoemd. Vermeulen (2001) beschrijft psycho-educatie als een methodiek die bestaat uit allerlei opvoedkundige of educatieve interventies gericht op: 1) het vergroten van kennis over een syndroom, ziekte of aandoening en de beperkingen die daarbij horen; 2) bewustwording van de betekenis en gevolgen (psychisch, fysiek, sociaal) van de beperkingen in het dagelijks leven; en 3) het bieden van handvatten voor het leren omgaan met de beperkingen en het daarbij kunnen inzetten van de eigen kwaliteiten. Uit de inventarisatie bleek dat deze vorm van ondersteuning sinds 2016 ook aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher wordt geboden. Dit wordt gedaan vanuit Koninklijke Kentalis.

Op basis van deze bevinding zijn er gesprekken gevoerd met de professionals van Koninklijke Kentalis die deze psycho-educatie bieden. Hieruit bleek dat er nog geen eenduidige psycho-educatie methodiek voor professionals die gezinnen met een kind met het syndroom van Usher ondersteunen beschikbaar was. Dit is de aanleiding geweest om het project 'Coping met Usher' te starten. In het project 'Coping met Usher' is samen met experts

(ervaringsdeskundigen en professionals werkzaam in de ZG-sector) onderzoek gedaan naar een eenduidige doeltreffende aanpak om gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te ondersteunen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher.

Onderzoeksvraag

De hoofdvraag van het project 'Coping met Usher' luidde: *Hoe kan psycho-educatie gezinnen met een kind met het syndroom van Usher doeltreffend ondersteunen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher?*

Om antwoord te kunnen geven op de hoofdvraag, werden zes deelvragen opgesteld:

1. Welke informatie en ondersteuning hebben gezinnen met een kind met het syndroom van Usher nodig om te leren omgaan met het syndroom van Usher volgens mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher?
2. Welke vormen van informatie en ondersteuning dragen bij aan het leren omgaan met het syndroom van Usher volgens mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher?
3. Wat wordt er tot op heden in de praktijk geboden aan psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher volgens professionals?
4. Welke materialen moeten er voor professionals worden ontwikkeld om psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te kunnen bieden?
5. In welke mate zijn de professionals en de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher tevreden over de psycho-educatie die geboden wordt door middel van de materialen die zijn ontwikkeld binnen het project 'Coping met Usher'?
6. In welke mate leveren de materialen, die zijn ontwikkeld binnen het project 'Coping met Usher', een bijdrage aan het bereiken van beoogde doelen binnen de psycho-educatie volgens de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en de professionals?

2 Projectteam en klankbordgroep

Vanuit het co-creatie principe zijn de doelgroep en verschillende andere belanghebbenden bij het project betrokken geweest: mensen met het syndroom van Usher, ouders van een kind met het syndroom van Usher, professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher, en professionals die andere vormen van ondersteuning bieden aan mensen en/of gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De participatiematrix is gebruikt om het samenwerkingsproces tussen de verschillende stakeholders te ondersteunen (Smits et al., 2018). De participatiematrix beschrijft verschillende rollen die stakeholders binnen een project kunnen hebben, namelijk: toehoorder, meedenker, adviseur, partner en regisseur. Gedurende het project hebben stakeholders verschillende rollen gehad. Het projectteam van het project 'Coping met Usher' vervulden de rollen van partner en regisseur. Zie tabel 1 voor de samenstelling en de rollen van het projectteam.

Tabel 1 Samenstelling projectteam project 'Coping met Usher'

Aantallen en functies projectteam	Rol op basis van de participatiematrix
1 Projectleider en onderzoeker Koninklijke Kentalis	Regisseur
2 Senior onderzoekers Koninklijke Kentalis & RUG	Partner
1 Ervaringsdeskundige – Volwassene met het syndroom van Usher	Partner
1 Ervaringsdeskundige – Ouder van een kind met het syndroom van Usher	Partner
1 Professional psycho-educatie syndroom van Usher Koninklijke Kentalis	Partner

Naast het projectteam had het project 'Coping met Usher' ook een klankbordgroep. De klankbordgroep participeerde in de rol van meedenker en adviseur. Deze klankbordgroep werd geconsulteerd bij het maken van belangrijke besluiten binnen het project (bijv. over hoe de deelnemers worden geworven en welke materialen er worden ontwikkeld). Daarnaast werd de klankbordgroep gedurende het project geïnformeerd over het verloop van het project, de onderzoeksresultaten en eventuele vervolgstappen. Zie tabel 2 voor de samenstelling en de rollen van de klankbordgroep.

Tabel 2 Samenstelling klankbordgroep project 'Coping met Usher'

Aantallen en functies klankbordgroep	Rol op basis van de participatiematrix
1 KNO-arts Radboudumc	Meedenker/adviseur
2 Ervaringsdeskundige – Volwassenen met het syndroom van Usher	Meedenker/adviseur
2 Ervaringsdeskundige – Ouders van een kind met het syndroom van Usher	Meedenker/adviseur
2 Professional Koninklijke Kentalis	Meedenker/adviseur
1 Professional GGMD	Meedenker/adviseur

Verder zijn nog vijf externe adviseurs (onderzoekers die onderzoek deden naar psycho-educatie bij andere doelgroepen) betrokken geweest in de rol als meedenker/adviseur bij het opstellen van het onderzoeksplan van het project 'Coping met Usher' en tijdens de uitvoering van het project zelf (o.a. bij het ontwikkelen van materialen). Deze externe adviseurs waren geen lid van het projectteam of de klankbordgroep.



3 Doelen en aanpak: drie projectfases

Doel van het project

In het project 'Coping met Usher' ontwikkelden we materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Om deze materialen te kunnen ontwikkelen zijn verschillende onderzoeken uitgevoerd om inzicht te krijgen in welke ondersteuningsbehoefte gezinnen met een kind met het syndroom van Usher hebben en welke materialen professionals vervolgens nodig hebben om deze ondersteuning in de vorm van psycho-educatie te kunnen bieden aan de gezinnen. Het doel van het project was:

Eenduidigheid creëren in de manier waarop psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher wordt geboden.

Dat doen we door:

- a. Materialen te ontwikkelen die zoveel mogelijk aansluiten bij de ondersteuningsbehoeften van gezinnen met een kind met het syndroom van Usher,
- b. Onderzoek te doen of de ontwikkelde materialen aansluiten bij de behoeften van de professionals die deze psycho-educatie bieden,
- c. De ontwikkelde materialen beschikbaar te stellen, zodat deze gebruikt kunnen worden in de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.

Aanpak

De 'Intervention Mapping' aanpak is gebruikt voor de opzet en de planning van het project. Deze aanpak kan gebruikt worden voor het ontwikkelen, implementeren en evalueren van een interventie (Bartholomew Eldredge et al., 2016). De 'Intervention Mapping' aanpak bestaat volgens Bartholomew Eldredge et al. (2016) uit zes stappen met specifieke taken. De stappen zijn als volgt:

1. Ontwikkel een 'logic-model' van het probleem waar de interventie zich op richt, gebaseerd op een behoeftebepaling,
2. Benoem de interventie uitkomsten en doelen – een 'logic-model' van verandering,
3. Ontwikkel het plan voor de interventie, inclusief het kader, volgorde, verandermethoden en praktische applicaties,

4. Produceer de interventie/materialen,
5. Plan het gebruik van de interventie, waaronder de adoptie, implementatie en het behoud,
6. Maak een evaluatieplan.

Gebaseerd op de zes stappen van de 'Intervention Mapping' aanpak is het project 'Coping met Usher' ingedeeld in drie projectfasen:


1. Een *oriëntatiefase* waarin de ondersteuningsbehoeften van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher in kaart werden gebracht voor het kunnen ontwikkelen van de materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher (stap 1 & 2 van Intervention Mapping),
2. Een *productiefase* waarin een plan werd gemaakt voor het ontwikkelen van de materialen en dit plan voor het ontwikkelen van de materialen werd uitgevoerd (stap 3 & 4 van Intervention Mapping),
3. Een *uitvoeringsfase* waarin de ontwikkelde materialen in gebruik werden genomen en geëvalueerd (stap 5 & 6 van Intervention Mapping).



4 Aanpak oriëntatiefase (eerste fase)

Tijdens de oriëntatiefase werd het probleem - *het ervaren van onvoldoende professionele ondersteuning bij het leren omgaan met het syndroom van Usher na het stellen van de diagnose* - dat gezinnen met een kind met het syndroom van Usher ervaren onderzocht en beschreven. Dit werd gedaan door verschillende deelstudies uit te voeren. De deelstudies waren:

- Deelstudie 1: een *literatuurstudie* naar wat er op basis van wetenschappelijk onderzoek bekend is over de ondersteuningsbehoeften van mensen met het syndroom van Usher en van ouders van een kind met het syndroom van Usher en over de ondersteuningsadviezen die gegeven worden aan hen;
- Deelstudie 2: een *interviewstudie* naar de ondersteuningsbehoeften van ouders van een kind met het syndroom van Usher na het stellen van de diagnose;
- Deelstudie 3: een *focusgroepstudie* naar de ondersteuningsbehoeften van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher bij het leren omgaan met het syndroom van Usher en hun ervaringen met de ondersteuning die zij hebben ontvangen;
- Deelstudie 4: een *enquêtstudie* naar de ervaringen van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher met de ondersteuning die zij hebben ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher;
- Deelstudie 5: een *inventarisatiestudie* naar bestaande en beschikbare methodieken of interventies die in de praktijk gebruikt worden om gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te ondersteunen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher;
- Deelstudie 6: een *expertstudie* waarin door middel van expertmeetings: 1) consensus werd bereikt op de definitie van psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher, 2) thema's werden opgehaald die van belang zijn bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher, 3) de resultaten van de inventarisatiestudie werden besproken en 4) keuzes werden gemaakt over welke materialen voor professionals ontwikkeld zouden moeten worden ter ondersteuning van de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.



5 Deelstudie 1: Methode van de literatuurstudie (eerste fase)

Doel en design

Het doel van de literatuurstudie was inzicht krijgen in wat uit wetenschappelijk onderzoek reeds bekend was over: 1) *ondersteuningsbehoeften* van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher bij het leren omgaan met het syndroom van Usher en 2) *ondersteuningsadviezen* die aan hen gegeven worden. De resultaten van de literatuurstudie droegen bij aan het beantwoorden van deelvragen 1 en 2. Er is een semi-gestructureerd literatuuronderzoek uitgevoerd.

Zoekstrategie

In de periode april 2019 tot en met mei 2019 is de search voor de literatuurstudie uitgevoerd. Een combinatie van de volgende zoektermen is gebruikt in de zoekmachines ERIC en PsychINFO: 'Usher syndrome', 'support needs', 'experience', 'needs', 'impact', 'psycho-education', 'counseling', 'intervention', 'therapy' en 'empowerment'. Relevante artikelen werden uit de zoekresultaten geselecteerd op basis van vooraf opgestelde inclusiecriteria: 1) de bron is Engelstalig; 2) de bron is peer-reviewed; 3) de bron is afkomstig uit een wetenschappelijk tijdschrift of boek. Exclusiecriteria waren: 1) bronnen met een publicatiedatum van voor 1990; 2) bronnen met uitkomstmaten die niet relevant zijn voor de opgestelde onderzoeksvragen. Omdat er een beperkt aantal bronnen op basis van de eerste search werd gevonden heeft er in juni 2019 een tweede search plaatsgevonden. Tijdens de tweede search is exclusiecriteria 1) komen te vervallen.

Selectie van artikelen

Het selecteren van artikelen is tijdens de eerste search uitgevoerd door twee studenten van de RUG onder begeleiding van één senior onderzoeker van het projectteam. Het selecteren van artikelen in de tweede search is uitgevoerd door vijf studenten van de RUG onder begeleiding van dezelfde senior onderzoeker van het projectteam. Om te bepalen of de gevonden artikelen voldeden aan de inclusie- en exclusiecriteria, werden eerst de titels en samenvattingen van de artikelen gelezen. Vervolgens werd van potentieel interessante

artikelen de gehele tekst onderzocht op relevantie. Op basis van de selectie zijn er in totaal, zonder duplicaten, 12 artikelen geïncludeerd in de literatuurstudie. Tabel 3 geeft een overzicht van de 12 artikelen.

Tabel 3. Overzicht van de geïncludeerde artikelen in de literatuurstudie

Auteurs	Jaartal	Doelgroep	Type onderzoek	Aantal deelnemers	Meetinstrument
Altshuler	1978	Mensen met een beperking in horen én zien (doofblindheid)	Literatuurstudie	-	-
Côté et al.	2013	Mensen met Usher type 2	Empirisch	7	Vragenlijst
Dammeyer	2012	Kinderen met Usher	Empirisch	9	Vragenlijst
Ehn et al.	2019	Mensen met Usher type 2a	Empirisch	14	Interviews
Ehn et al.	2016	Mensen met Usher type 2	Empirisch	67	Vragenlijst
Gullacksen et al.	2011	Mensen met een beperking in horen én zien (doofblindheid)	Literatuurstudie & empirisch	15	Focusgroepen
Hammer	1978	Adolescenten met Usher	Literatuurstudie	-	-
Högner	2015	Mensen met Usher type 2	Empirisch	262	Vragenlijst
Miner	1995	Mensen met Usher type 1	Empirisch	39	Interviews
Miner	1997	Mensen met Usher type 2	Empirisch	32	Interviews
Möller	2008	Mensen met een beperking in horen én zien (doofblindheid)	Literatuurstudie & empirisch	Studie 2: n = 33 Studie 3: n = 34 Studie 4: n = 9 Studie 5: n = 3	Studie 1: literatuur Studie 2: interviews en vragenlijst Studie 3: vragenlijst Studie 4: patiëntendossiers Studie 5: interviews en patiëntendossiers
Torrie	1978	Kinderen met Usher en ouders	Literatuur	-	-

Data-extractie en data-analyse

De 12 artikelen zijn door een onderzoeker uit het projectteam op inhoud geanalyseerd. Alle artikelen zijn gelezen en resultaten over de ondersteuningsbehoeften van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher zijn genoteerd. Vervolgens is ook gekeken of de artikelen informatie bevatten over bestaande ondersteuningsvormen die bijdragen aan het leren omgaan met het syndroom van Usher. Ook deze resultaten zijn door de onderzoeker uit het projectteam genoteerd.

6 Deelstudie 2: Methode van de interviewstudie (eerste fase)

Doel en design

De interviewstudie had als doel inzicht krijgen in de ondersteuningsbehoeften van ouders van een kind met het syndroom van Usher na het stellen van de diagnose. De resultaten van de interviewstudie droegen bij aan het beantwoorden van deelvragen 1 en 2. Tijdens de interviewstudie zijn semigestructureerde interviews uitgevoerd. De vragen voor alle geïnterviewden waren hetzelfde. Daarnaast was er de mogelijkheid voor de interviewer om door te vragen op basis van de gegeven antwoorden.

Interviewopstelling

De vragen voor de interviews werden opgesteld aan de hand van de informatie opgehaald uit de literatuurstudie. Aanvullend is er ook literatuur over diagnose-gesprekken gebruikt (SPIKES-protocol; Baile et al., 2000). Op basis daarvan zijn er acht thema's voor het interview geïdentificeerd: 1) emoties; 2) informatie; 3) ondersteuning direct na de diagnose; 4) ondersteuning op langere termijn; 5) verandering in de ondersteuning; 6) houding professional; 7) samenwerking met professionals en 8) samenwerking met lotgenoten. Op basis van deze thema's zijn de interviewvragen opgesteld.

Procedure

De beoogde steekproef bestond uit ouders van kinderen met het syndroom van Usher. Inclusiecriteria voor deelname waren: 1) de diagnose van het syndroom van Usher moest door een specialist zijn vastgesteld; 2) de ouders moesten woonachtig zijn in Nederland. Een exclusiecriteria was: 1) niet de Nederlandse taal of Nederlandse gebarentaal beheersen. Er waren op voorhand geen criteria gesteld voor de leeftijd van het kind met het syndroom van Usher op het moment dat de diagnose werd gesteld of op het moment dat het interview werd afgenomen.

Voor het werven van deelnemers is gebruik gemaakt van een gelegenheidssteekproef (convenience sampling). De deelnemers zijn benaderd via Koninklijke Kentalis en het expertiscentrum Ushersyndroom van het

Radboudumc. Daarnaast zijn deelnemers geworven via een landelijke patiëntenorganisatie voor mensen met een zintuiglijke beperkingen en sociale media-kanalen (bijvoorbeeld Facebook). Tijdens de werving zijn deelnemers over het onderzoek geïnformeerd middels een schriftelijke informatiefolder. Deelnemers konden zich voor het onderzoek opgeven via een e-mailadres van een onderzoeker van het projectteam. Voor het onderzoek hebben 11 deelnemers zich aangemeld. Na het toepassen van de inclusie- en exclusiecriteria bleken alle deelnemers geschikt om deel te nemen aan het onderzoek.

Per mail werd vervolgens informatie over de achtergrondkenmerken van de deelnemers opgehaald, zoals leeftijd van het kind, type syndroom van Usher, gezinssamenstelling, tijd verstreken sinds het stellen van de diagnose van het syndroom van Usher, leeftijd van het kind ten tijde van het stellen van de diagnose en bekendheid met het syndroom van Usher voorafgaand aan de diagnose. Voorafgaand aan het interview gaven de deelnemers toestemming via een toestemmingformulier voor deelname aan het onderzoek en voor het opnemen van het interview via een audiorecorder. Vervolgens werden de deelnemers per e-mail uitgenodigd voor het interview. De interviews vonden plaats bij de deelnemers thuis en duurden gemiddeld 64 minuten. De interviews zijn afgenomen tussen september 2019 en oktober 2019 door drie getrainde onderzoekers.

Deelnemers

Aan de interviews deden 11 ouders van 10 kinderen met het syndroom van Usher mee. De deelnemers waren woonachtig in verschillende regio's van Nederland. Meer informatie over de achtergrondkenmerken van de deelnemers is te vinden in tabel 4.

Tabel 4: Achtergrondkenmerken deelnemers interviewstudie

Achtergrondkenmerken	Ouders van een kind met het syndroom van Usher (N = 11)
Aantallen	11 ouders van 10 kinderen met het syndroom van Usher
Leeftijd ouders	37 – 48 jaar
Geslacht ouders	4 mannen; 7 vrouwen
Leeftijd kinderen	4 – 21 jaar
Type syndroom van Usher	1 en 2

Data-analyse

Van elk interview is een audio-opname gemaakt. De audio-opnames zijn verbatim getranscribeerd door twee studenten van de RUG. De transcripten werden daarna voorgelegd aan de deelnemers ter controle. Vervolgens zijn de transcripten gepseudonimiseerd en zijn privacygevoelige gegevens verwijderd. Daarna zijn de transcripten door de studenten geanalyseerd op fenomenologisch-hermeneutische wijze (Flick, 2018) met behulp van het programma ATLAS.ti (versie 8.1.3; Atlas.ti 2019). Deze wijze van analyseren richt zich op het centraal stellen van de geleefde ervaring (Flick, 2018). Er wordt bij fenomenologisch-hermeneutische analyse met name gelet op de betekenis die de geïnterviewde aan de geleefde ervaring geeft. Allereerst hebben de studenten de data gecodeerd en vervolgens zijn de coderingsresultaten besproken met een senior onderzoeker van het projectteam. De studenten en de senior onderzoeker hebben op alle codes 100% overeenstemming bereikt.

Ethische toetsing

Voorafgaand aan de uitvoering van deelstudie 2 is er toestemming verkregen voor het uitvoeren van het onderzoek door de ethische commissie van de afdelingen Pedagogische Wetenschappen en Onderwijskunde (PEDON) van de RUG.



7 Deelstudie 3: Methode van de focusgroepstudie (eerste fase)

Doel en design

Het doel van de focusgroepstudie was inzicht krijgen in de ondersteuningsbehoeften van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher en hun ervaringen met de ondersteuning die zij hebben ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. De resultaten van de focusgroepstudie droegen bij aan het beantwoorden van deelvragen 1 en 2.

Draaiboek focusgroep

Voorafgaand aan het houden van de focusgroepen zijn er door het projectteam twee draaiboeken opgesteld: één voor de focusgroepen met mensen met het syndroom van Usher en één voor de focusgroep met ouders van een kind met het syndroom van Usher. Ieder draaiboek bevatte een gespreksprotocol met vragen die gesteld werden door de gespreksleider tijdens de focusgroep. Deze vragen zijn gebaseerd op de resultaten van de literatuurstudie en de interviewstudie.

Procedure

De beoogde steekproef bestond uit mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher. Inclusiecriteria waren: 1) de diagnose Usher moet door een specialist zijn vastgesteld; 2) de ouders moeten woonachtig zijn in Nederland. Exclusiecriteria waren: 1) niet de Nederlandse taal of Nederlandse gebarentaal beheersen; 2) kind was niet in de leeftijd van 0 tot 18 jaar; 3) hebben deelgenomen aan de interviewstudie.

Bij de werving van deelnemers is gebruik gemaakt van een gelegenheidssteekproef (convenience sampling). De deelnemers zijn geworven via oproepen op sociale media en via Stichting Ushersyndroom. Potentiële deelnemers konden zich via een online enquête (verstuurd via e-mail) aanmelden voor het onderzoek. In deze enquête werden de achtergrondkenmerken, die nodig waren voor het toepassen van de inclusie- en exclusiecriteria, van potentiële deelnemers uitgevraagd. In totaal hebben 41 potentiële deelnemers zich

aangemeld voor het onderzoek: 21 mensen met het syndroom van Usher en 20 ouders van kinderen met het syndroom van Usher. Na het toepassen van de inclusie- en exclusiecriteria bleken alle deelnemers geschikt om deel te nemen aan het onderzoek. Vervolgens zijn alle deelnemers telefonisch benaderd voor het inplannen van de focusgroepen. Uiteindelijk zijn 17 van de 41 deelnemers afgevallen tijdens het inplannen van de focusgroepen, vanwege beperkte beschikbaarheid en tijd.

Voorafgaand aan de focusgroepen werd de deelnemers om toestemming gevraagd voor deelname aan het onderzoek en voor het opnemen van het groeps gesprek. De focusgroepen werden opgenomen via een videorecorder. Er zijn in totaal drie focusgroepen uitgevoerd: één focusgroep met mensen met het syndroom van Usher in de leeftijd van 18 tot 30 jaar, één focusgroep met mensen met het syndroom van Usher van 30 jaar en ouder en één focusgroep met ouders van een kind met het syndroom van Usher. De focusgroepen vonden plaats in periode van november 2019 en januari 2020 op verschillende locaties van Koninklijke Kentalis in Nederland. De focusgroepen werden geleid door twee getrainde gespreksleiders en duurden allemaal maximaal 75 minuten.

Deelnemers

In totaal hebben 24 deelnemers deelgenomen aan de focusgroepen. Meer informatie over de achtergrondkenmerken van de deelnemers is te vinden in tabel 5.

Tabel 5: Achtergrondkenmerken deelnemers focusgroepstudie


Achtergrondkenmerken	Focusgroep 1	Focusgroep 2	Focusgroep 3
Aantallen	6 mensen met het syndroom van Usher	8 mensen met het syndroom van Usher	10 ouders van een kind met het syndroom van Usher
Leeftijd	18 – 30 jaar	30 jaar en ouder	Onbekend
Type syndroom van Usher	1 en 2	1, 2 en 3	1, 2 en 3
Geslacht	4 vrouwen; 2 mannen	8 vrouwen	6 vrouwen; 4 mannen

Data-analyse

De opnames van de focusgroepen zijn verbatim getranscribeerd door een transcriptiebureau. De transcripten werden daarna voorgelegd aan de deelnemers ter controle. Vervolgens werden de transcripten gepseudonimiseerd en zijn privacygevoelige gegevens verwijderd.

De data van de focusgroepen zijn aan de hand van thematische analyse geanalyseerd (Kiger & Varpio, 2020). Allereerst werd er een concept codeboek opgesteld aan de hand van de thema's van zelfmanagement, opgehaald uit de studie van Dwarswaard & van de Bovenkamp (2015). De thema's waren: 1) instrumentele steun (4 codes); 2) psychosociale steun (2 codes); 3) relationele steun (2 codes) en 4) uniekheid (3 codes). Dit concept codeboek werd aangevuld met thema's opgehaald uit het onderzoeksproject 'Blind Vertrouwen' (Damen et al., 2023; Van Zadelhoff & Damen, 2018). De thema's waren: 5) suggesties in ondersteuning (1 code); 6) gemiste ondersteuning (1 code); 7) negatieve ervaringen (2 codes); 8) positieve ervaringen (2 codes); 9) onderwijs regulier (1 code); 10) onderwijs speciaal (1 code) en 11) hulpmiddelen (1 code). Vervolgens werden deze thema's geoptimaliseerd door middel van open coding van de focusgroepen. Dit resulteerde in een definitief codeboek van 37 codes.

De data-analyse is uitgevoerd door vier codeurs (twee onderzoekers en twee ervaringsdeskundigen uit het projectteam) in het programma ATLAS.ti (versie 8.1.3; Atlas.ti 2019). De codeurs hadden iedere maand een overleg om verschillen in codering te bespreken totdat er consensus was bereikt. Uiteindelijk is op alle codes 100% consensus bereikt. Op basis van de codes zijn er door de vier codeurs thema's gemaakt op basis van samengestelde codes. Deze thema's zijn vervolgens samengevat tot resultaten.



8 Deelstudie 4: Methode van de enquêtestudie (eerste fase)

Doel en design

Het doel van de enquêtestudie was inzicht krijgen in de ervaringen van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher met de ondersteuning die zij hebben ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Op basis van de resultaten van de focusgroepstudie bleek dat meer informatie nodig was van een grotere groep deelnemers om een completer beeld te krijgen van de ervaringen van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher met de ondersteuning die zij hebben ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Om die reden is er na de focusgroepstudie nog een enquêtestudie uitgevoerd. De resultaten van de enquêtestudie droegen bij aan het beantwoorden van deelvragen 1 en 2.

Enquête opstelling

De vragen voor de enquête zijn opgesteld op basis van de resultaten van de focusgroepstudie. De resultaten van de focusgroepen gaven inzicht in welke ondersteuningsvormen er in Nederland beschikbaar zijn voor mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher. De deelnemers van de enquêtestudie zijn bevraagd of zij deze ondersteuningsvorm kenden, hier gebruik van hadden gemaakt en wat hun ervaringen ermee waren. Er waren twee versies van de enquête: één voor mensen met het syndroom van Usher en één voor ouders van een kind met het syndroom van Usher. Ouders van een kind met het syndroom van Usher beantwoordden naast vragen over hun eigen ervaringen met de ontvangen ondersteuning ook vragen over de ervaringen van hun kind met het syndroom van Usher met de ontvangen ondersteuning.

Procedure

De beoogde steekproef van de enquêtestudie bestond uit mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher. Inclusiecriteria voor deelname waren: 1) de diagnose Usher moet door een specialist zijn vastgesteld; 2) deelnemers moeten 18 jaar of ouder zijn. Exclusiecriteria waren: 1) niet de Nederlandse taal of Nederlandse gebarentaal beheersen; 2) hebben deelgenomen aan de interviewstudie of de focusgroepstudie.

Bij de werving van deelnemers is gebruik gemaakt van een gelegenheidssteekproef (convenience sampling). De deelnemers zijn geworven via oproepen op sociale media en via Stichting Ushersyndroom en Koninklijke Kentalis. Potentiële deelnemers konden zich aanmelden via een online wervingsvragenlijst. Deelnemers konden de enquête digitaal invullen, nadat zij toestemming hadden gegeven in het online enquêteformulier voor deelname aan het onderzoek. De online enquête werd voorafgaand aan de start van de dataverzameling getest door twee mensen met het syndroom van Usher, een ouder van een kind met het syndroom van Usher en een onderzoeker uit het projectteam. Deelnemers die vanwege hun zintuiglijke beperking niet- of moeilijk de enquête konden invullen, konden hulp krijgen bij het invullen van de enquête van een onderzoeker. Ook mochten deelnemers voor het invullen van de enquête hulp vragen aan naasten of een tolk. De enquête kon tussen februari 2020 en maart 2020 worden ingevuld. Uiteindelijk hebben 57 deelnemers het online enquêteformulier voor deelname ingevuld. Op basis van de inclusie- en exclusiecriteria vielen 18 deelnemers af.

Deelnemers

In totaal hebben 39 deelnemers meegedaan aan de enquêtestudie: 23 mensen met het syndroom van Usher en 16 ouders van een kind met het syndroom van Usher, zie tabel 6.

Tabel 6 Achtergrondkenmerken deelnemers enquêtestudie

Achtergrondkenmerken	Mensen met het syndroom van Usher (N = 23)	Ouders van een kind met het syndroom van Usher (N = 16)
Geslacht	15 vrouwen; 8 mannen	12 vrouwen; 4 mannen
Geslacht kinderen	N.v.t	7 meisjes; 9 jongens
Gemiddelde leeftijd	44 jaar (min=19 jaar; max=85 jaar)	43 jaar (min=26 jaar; max=59jaar)
Gemiddelde leeftijd kinderen	N.v.t.	12 jaar (min=4 jaar, max=23 jaar)
Usher type	Type 1 = 5 mensen Type 2 = 18 mensen Type 3 = n.v.t.	Type 1 = 3 kinderen Type 2 = 12 kinderen Type 3 = 1 kind
Gemiddelde leeftijd diagnose syndroom van Usher	21 jaar (min=6 jaar; max=34jaar)	5 jaar (min=7 maanden; max=19 jaar)

Data-analyse

De kwantitatieve data van de enquêtestudie zijn geanalyseerd door middel van descriptieve analyses door een onderzoeker van het projectteam in Excel. De kwalitatieve data zijn door dezelfde onderzoeker geanalyseerd in Word. Van de kwalitatieve data zijn samenvattingen gemaakt van de gegeven antwoorden.

9 Deelstudie 5: Methode van de inventarisatiestudie (eerste fase)

Doel en design

Het doel van de inventarisatiestudie was inzicht krijgen in welke bestaande en beschikbare methodieken of interventies in de praktijk worden gebruikt om gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te ondersteunen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. De resultaten van de inventarisatiestudie droegen bij aan het beantwoorden van deelvraag 3. In de inventarisatiestudie is gebruik gemaakt van vragenlijsten om de gegevens op te halen.

De inventarisatie

De inventarisatie bestond uit drie rondes. Per ronde is één vragenlijst opgesteld. In totaal zijn er dus drie vragenlijsten opgesteld. De vragen in de vragenlijst zijn opgesteld door het projectteam.

- Ronde 1 - vragenlijst 1: Deze vragenlijst bevatte de vraag of de deelnemende professionals een overzicht konden maken van methodieken en interventies die zij op dit moment inzetten in de psycho-educatie aan mensen met een zintuiglijke beperking.
- Ronde 2 - vragenlijst 2: Deze vragenlijst bevatte een overzicht met methodieken en interventies opgesteld op basis van de gegeven antwoorden in ronde 1. In deze ronde gaven de deelnemende professionals aan of ze deze methodieken en interventies gebruikten of niet.
- Ronde 3 - vragenlijst 3: Deze vragenlijst bevatte zeven verdiepende vragen over de in ronde 1 opgehaalde methodieken en interventies waaruit ronde 2 bleek dat de deelnemende professionals deze gebruikten.

Procedure

De beoogde steekproef van de inventarisatiestudie bestond uit professionals die werken met mensen met een zintuiglijke beperking bij Koninklijke Kentalis, Bartiméus, GGMD, Koninklijke Visio of Kalorama. Verspreiding van de vragenlijsten vond plaats via contactpersonen binnen de betrokken organisaties uit de ZG-sector. Binnen iedere organisatie waren één of meerdere contactpersonen verantwoordelijk voor het verspreiden van de vragenlijsten van de inventarisatiestudie. Deze contactpersonen benaderden hun collega's voor

het invullen van de vragenlijst. Vervolgens hebben de contactpersonen de ingevulde vragenlijst teruggestuurd naar een onderzoeker van het projectteam.

De vragenlijsten werden door de contactpersoon via e-mail verzonden naar de collega's. Zij stuurden de ingevulde vragenlijst ook weer via e-mail terug naar de contactpersoon. De contactpersonen stuurden de ingevulde vragenlijsten via e-mail naar de onderzoeker. De inventarisatie vond plaats tussen maart 2020 en juli 2020. De inventarisatiestudie leverde 46 uniek gebruikte methodieken en interventies op.

Deelnemers

In totaal zijn er acht contactpersonen betrokken geweest bij de inventarisatiestudie. Deze groep contactpersonen bestond uit zeven vrouwen en één man.

Data-analyse

De kwantitatieve data van de inventarisatiestudie zijn geanalyseerd door middel van descriptieve analyses door een onderzoeker van het projectteam in Excel. De kwalitatieve data zijn door dezelfde onderzoeker geanalyseerd in Word. Van de kwalitatieve data zijn samenvattingen gemaakt van de gegeven antwoorden.



10 Deelstudie 6: Methode van de expertstudie (eerste fase)

Doel en design

Voor deelstudie 6 zijn twee expertmeetings gehouden. Elke expertmeeting had twee doelen.

- De doelen van de eerste expertmeeting waren: 1) formuleren van de definitie voor psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher; 2) ophalen van thema's die van belang zijn bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.
- De doelen van de tweede expertmeeting waren: 3) de resultaten van de inventarisatiestudie bespreken; 4) keuzes maken over welke materialen ontwikkeld moeten worden ter ondersteuning van professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.
- De resultaten van de expertstudie droegen bij aan het beantwoorden van deelvraag 3 en 4.

De expertmeetings

Voor het formuleren van de definitie van psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher (doel 1) werd de definitie van psycho-educatie van Isarin (2019) als uitgangspunt genomen. Tijdens het eerste deel van de eerste expertmeeting werd deze definitie gepresenteerd en de experts om hun mening gevraagd. Om de thema's te achterhalen die volgens experts van belang zijn bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher (doel 2) zijn in het tweede deel van de eerste expertmeeting discussievragen voorgelegd aan de experts. Na afloop van de eerste expertmeeting kregen de experts een uitwerkopdracht mee: vraag collega's mogelijke thema's te benoemen voor de psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en stuur deze op naar de projectleider van het projectteam.

In het eerste deel van de tweede expertmeeting zijn de resultaten van de inventarisatiestudie besproken (doel 3). Een overzicht van alle methodieken en interventies werd gepresenteerd tijdens de expertmeeting. Vervolgens werd een discussie gestart, geleid door een onafhankelijke gespreksleider,

over de kenmerken van de methodieken en interventies, de achtergrond, de randvoorwaarden en ervaringen met het toepassen ervan en eventuele geschiktheid. Op basis van deze gesprekken werd in het tweede deel van de expertmeeting verder gediscussieerd over welke materialen ontwikkeld zouden moeten worden voor professionals ter ondersteuning van de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher (doel 4).

Procedure

De beoogde steekproef van de expertmeetings bestond uit maximaal 10 professionals die werken met mensen een zintuiglijke beperking bij één van de ZG-organisaties (Bartiméus, Koninklijke Visio, Koninklijke Kentalis, GGMD en Kalorama). De experts moesten de Nederlandse taal of Nederlandse gebarentaal beheersen. De experts die als contactpersoon of als deelnemer mee hadden gedaan aan de inventarisatiestudie mochten ook meedoen aan de expertstudie. Potentiële professionals werden schriftelijk benaderd voor deelname aan de expertstudie door leden van het projectteam. Op één na hebben alle professionals die als contactpersoon hebben deelgenomen aan de inventarisatiestudie ook meegedaan aan de expertmeetings. Daarnaast is nog een extra expert geworven door de projectleden. De twee expertmeetings vonden plaats in september 2020. Beide meetings duurden 2,5 uur. Deze expertmeetings werden geleid door een onafhankelijke gespreksleider. Twee onderzoekers van het projectteam ondersteunden de gespreksleider.

Deelnemers

In totaal hebben negen experts meegedaan aan de expertmeetings. De groep met experts bestond uit één man en acht vrouwen. De experts waren werkzaam bij Koninklijke Kentalis (n = 5), GGMD (n = 2), Koninklijke Visio (n = 1) en Bartiméus (n = 1). Zij hadden daar een functie als behandelcoördinator, ambulant begeleider, gezinsbegeleider en/of onderwijsbegeleider.

Data-analyse

De gesprekken tijdens de expertmeetings zijn uitgeschreven en geanalyseerd door de onderzoekers van het projectteam.

- Doel 1: Alle input op de definitie van psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher werd samengevat. Op basis hiervan werd de definitie aangepast door een onderzoeker en twee ervaringsdeskundigen uit het projectteam. Vervolgens is de definitie besproken in een overleg met het hele projectteam en voorgelegd via e-mail aan de

klankbordgroep. De gegeven input vanuit het projectteam en de klankbordgroep werd vervolgens verwerkt tot een definitieve definitie door een onderzoeker, een professional en twee ervaringsdeskundigen van het projectteam.

- Doel 2: Alle thema's die waren opgehaald werden in een overzicht geplaatst door twee onderzoekers van het projectteam. Dit overzicht werd gebaseerd op het ICF-model (World Health Organization, 2013).
- Doel 3 en 4: Alle input van de discussies over de geïnventariseerde methodieken, interventies en benodigde materialen werd samengevat door twee onderzoekers van het projectteam. Deze samenvatting is besproken met het projectteam en voorgelegd aan de klankbordgroep. Uiteindelijk zijn deze resultaten in een overzicht verwerkt.

11 Deelstudie 1: Resultaten van de literatuurstudie (eerste fase)

Tabel 7 geeft een overzicht van de gevonden artikelen van de literatuurstudie. De artikelen zijn allemaal gepubliceerd in Europa of Noord-Amerika. De helft van de artikelen gaan over mensen met het syndroom van Usher type 2.

Tabel 7: overzicht gevonden artikelen literatuurstudie

Resultaten literatuurstudie (informatie artikelen)

Aantal geselecteerde artikelen literatuurstudie	12
Jaartal publicaties	Tussen 1978 en 2019
Landen publicaties	Canada, Denemarken, Zweden, Finland, Duitsland en de Verenigde Staten

Type syndroom van Usher

Type 1	2
Type 2	6
Type 3	1
Onbekend	3

Ondersteuningsbehoeften

In de gevonden artikelen van de literatuurstudie werden meerdere ondersteuningsbehoeften genoemd van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher. Zo rapporteerden meerdere studies dat mensen met het syndroom van Usher en/of ouders van een kind met het syndroom van Usher behoefte hebben aan kennis en informatie over het syndroom van Usher (e.g. Altshuler, 1978; Ehn et al., 2019; Miner 1997; Möller, 2008). Verschillende studies rapporteerden ook dat mensen met het syndroom van Usher en/of ouders van een kind met het syndroom van Usher behoefte hebben aan informatie over de gevolgen van het syndroom van Usher op latere leeftijd (e.g. Miner 1997; Hammer 1978). Verder wordt in de artikelen van de literatuurstudie ook beschreven dat mensen met het syndroom van Usher en/of ouders van een kind met het syndroom van Usher behoefte

hebben aan handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher (e.g. Altshuler, 1978; Ehn et al., 2019; Miner 1995; Danmeyer 2012; Möller, 2008). Bijvoorbeeld handvatten bij zelfstandig wonen, hulp en advies bij het aangaan en vormen van relaties, en handvatten bij de interactie en communicatie met anderen. Uit de artikelen van de literatuurstudie blijkt ook dat mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher behoefte hebben aan sociale en emotionele ondersteuning (Altshuler, 1978; Danmeyer, 2012; Gullacksen et al., 2011; Hammer, 1978; Miner, 1995; Miner, 1097; Torrie, 1978). Bijvoorbeeld zich verbonden voelen met anderen, iemand om mee te praten en gedachten en gevoelens mee uit te wisselen over het syndroom van Usher en contact met anderen met dezelfde beperking (lotgenoten). Verder wordt in de studie van Altshuler (1978) nog een specifieke ondersteuningsbehoefte van ouders van een kind met het syndroom van Usher gerapporteerd: ondersteuning bij het leren accepteren van de beperking en reguleren van de gevoelens die daaruit voortkomen.

Ondersteuningsadviezen


In de artikelen van de literatuurstudie worden ook ondersteuningsadviezen voor mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher beschreven. Een aantal adviezen richt zich op het bieden van kennis en informatie aan mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher (eg. Gullacksen et al., 2011; Miner, 1995; Miner, 1997; Möller, 2008; Torrie, 1978). Zo wordt er geadviseerd om medische informatie over het syndroom van Usher te geven en informatie te geven over de gevolgen van het syndroom voor het dagelijks leven. De studie van Miner (1997) adviseert om de kennis en informatie over het syndroom van Usher en beschikbare voorzieningen en ondersteuningsvormen direct na het stellen van de diagnose te geven. In meerdere artikelen wordt ook het advies gegeven om mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher handvatten te bieden bij het leren omgaan met het syndroom van Usher (Hammer, 1978; Miner, 1995, 1997; Torrie, 1978; Högner, 2015). Zo wordt geadviseerd om hen te ondersteunen in de communicatie en het aanleren van alternatieve communicatievormen. Ook wordt in de literatuur geadviseerd om mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher emotionele en sociale ondersteuning te bieden (Ehn et al., 2019; Gullacksen et al., 2011; Högner, 2015; Côté et al., 2013). Zo wordt er geadviseerd om met name emotionele ondersteuning te bieden in de eerste fase van het leven van mensen met het syndroom van Usher of ouders van een kind met het syndroom van Usher – bijvoorbeeld direct na het stellen van de diagnose – en aandacht te besteden aan het creëren van een sociaal netwerk waar mensen terecht kunnen voor emotionele en sociale ondersteuning. In een aantal artikelen wordt nog een aantal

specifieke ondersteuningsadviezen gegeven. Zo adviseert Miner (1997) dat er bij kinderen met het syndroom van Usher aandacht moet zijn voor mobiliteit. Högner (2015) stelt dat er bij volwassenen met het syndroom van Usher aandacht moet zijn voor ondersteunende technologieën. Dammeyer (2012) en Ehn en collega's (2019) adviseren dat er aandacht moet zijn bij mensen met het syndroom van Usher voor het optimaliseren van het restgehoor en de restvisus en dat er aandacht moet zijn voor eventuele mentale- en gedragsproblemen.

In de literatuur worden ook adviezen gegeven over de manier waarop ondersteuning geboden moet worden aan mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher (Côté et al., 2013; Miner 1995, 1997, Högner, 2015; Gullacksen et al., 2011; Möller, 2008). Zo wordt er geadviseerd om de ondersteuning op maat aan te bieden, om doelen af te stemmen met de mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher zelf en om de omgeving een actieve rol te geven in de ondersteuning.

Conclusie

Op basis van de literatuurstudie blijkt dat mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher meerdere ondersteuningsbehoeften hebben. Er is behoefte aan 1) kennis en informatie over het syndroom van Usher; 2) handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher en 3) emotionele en sociale ondersteuning. De ondersteuningsadviezen gegeven in de artikelen van de literatuurstudie sluiten hierbij aan. Opvallend verschil is dat bij de ondersteuningsbehoeften ook het contact met lotgenoten wordt genoemd, maar dat lotgenotencontact niet wordt meegenomen in de ondersteuningsadviezen. Verder geven meerdere artikelen in de literatuurstudie adviezen over de manier waarop de ondersteuning moet worden geboden aan mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher. Hierbij wordt een 'aanpak op maat' benadrukt en het betrekken van de omgeving in de ondersteuning.



12 Deelstudie 2: Resultaten van de interviewstudie (eerste fase)

Ondersteuningsbehoefte ouders na het stellen van de diagnose

Uit de interviews met ouders van een kind met het syndroom van Usher blijkt dat ouders behoefte hebben aan ondersteuning na het stellen van de diagnose. Zij zouden o.a. informatie willen ontvangen over het syndroom van Usher, over hoe zij in contact kunnen komen met professionals die bekend zijn met het syndroom van Usher, en welke voorzieningen en ondersteuningsvormen er voor hen zijn. Ook benoemen ouders dat zij deze informatie graag ontvangen van professionals, zodat ze er niet zelf naar hoeven te zoeken. Ook zouden zij deze informatie het liefst op één centrale plek willen vinden. Zo gaf één van de deelnemers het volgende aan:

Ouder - "...Ja, dat je dat op één plek kan vinden. Dat je bij wijze van op een site van Kentalis een plek hebt waar al dat soort informatie over Usher staat, wat gemakkelijk vindbaar is."

Daarnaast geven ouders aan na het stellen van de diagnose behoefte te hebben aan goede aansluiting én goede coördinatie van de zorg tussen de verschillende organisaties (auditief en visueel) en disciplines (maatschappelijk werker en leerkracht). Zij zouden het liefst één aanspreekpunt (professional) willen die communiceert met de verschillende organisaties en disciplines. Zo gaf één deelnemer het volgende aan:

Ouder - "... Ik zou het zo fijn vinden dat je iemand hebt die een soort regisseur is. Iemand die een helicopterview heeft op de gezinsbegeleiding van (naam kind). Dat die de informatie bij elkaar zet."

Meerdere ouders geven aan dat zij na het stellen van de diagnose behoefte hebben aan handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Zo geven meerdere ouders aan behoefte te hebben aan ondersteuning bij het informeren van het kind over het syndroom van Usher. Daarnaast willen ouders graag ondersteuning bij het maken van de juiste schoolkeuze voor hun kind. Zo gaven twee deelnemers het volgende aan:

Ouder - "Daarin zijn wij wel zoekende geweest. Welke school past nu het beste?"

Ouder - "Op enig moment gaan wij het natuurlijk wel aan hem moeten vertellen. Daar zou ik ook nog wel eens een soort van workshop is niet het goede woord, maar daar zou ik ook nog wel eens echt met professionals over willen samenzitten. Hoe doe je dat het beste?"

Ook geven op één na alle ouders aan na het stellen van de diagnose behoefte te hebben aan lotgenotencontact. Zij geven aan dat dit contact kan zorgen voor het ervaren van begrip voor de situatie waarin zij zitten en emotionele ondersteuning. Zo gaf één van de deelnemers het volgende aan:

Ouder - "...ja het feit dat het zo zeldzaam is maakt dat je ook direct met die mensen een klik hebt, dat is heel bijzonder. Zo van, je ziet elkaar voor het eerst bij wijze van spreken en toch heb je het gevoel ah, ik voel mij meer, bijna dichter bij jullie en meer familie dan met mijn eigen familie met momenten, omdat jullie precies weten waar het over gaat."

Ouders geven in de interviews ook aan dat zij specifieke behoeften hebben als het gaat om de manier waarop de ondersteuning wordt geboden door professionals. Ouders geven aan behoefte te hebben aan betrokken, proactieve en empathische professionals die gedurende een langere (niet nader gespecificeerde) periode betrokken zijn bij het gezin en waar een band mee kan worden opgebouwd. Ouders vinden het persoonlijke contact met professionals belangrijk, waarbij de samenwerking gelijkwaardig is en zij graag door de professionals als gelijke partners gezien willen worden. Ouders geven ook aan dat zij het met name belangrijk vinden dat de professionals voldoende kennis en ervaring hebben met het syndroom van Usher. Zo gaf één van de deelnemers het volgende aan:

Ouder "Uiteindelijk is kennis van Usher is natuurlijk het belangrijkste."

Conclusie

Uit de interviewstudie blijkt dat de ouders die geïnterviewd zijn ondersteuningsbehoeften hebben na het stellen van de diagnose. Zo zouden zij graag kennis en informatie willen ontvangen over het syndroom en de voorzieningen en ondersteuningsvormen die er zijn. Daarnaast zouden ze handvatten willen ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher, bijvoorbeeld bij 'hoe vertel ik het mijn kind?'. Verder benadrukken ouders het belang van lotgenotencontact als het gaat om emotionele en sociale ondersteuning. Ouders hebben ook aangegeven wat zij belangrijk vinden in de manier waarop de ondersteuning wordt geboden. Zo hebben zij behoefte aan professionals die empathisch zijn en met hen een gelijkwaardige band kunnen opbouwen. Een belangrijke voorwaarde is dat de professionals kennis hebben van het syndroom van Usher.

13 Deelstudie 3: Resultaten van de focusgroepstudie (eerste fase)

Ondersteuningsbehoeften

Op basis van de focusgroepen zijn verschillende ondersteuningsbehoeften van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher opgehaald. Tijdens het analyseren zijn deze ondersteuningsbehoeften ingedeeld in drie levensfasen:

1. Baby- en kinderfase vóórdát iemand met het syndroom van Usher zelf weet dat hij/zij het syndroom van Usher heeft,
2. Kinder- en adolescentenfase nádat iemand met het syndroom van Usher zelf weet dat hij/zij het syndroom van Usher heeft,
3. Volwassenenfase.

Alle deelnemers van de focusgroepen geven aan dat in de **baby- en kinderfase vóórdát iemand zelf weet dat hij/zij het syndroom van Usher heeft** de behoefte aan ondersteuning met name bij de naasten ligt. Naasten hebben behoefte aan kennis en informatie over het syndroom van Usher en handvatten in hoe zij hun kind het beste kunnen ondersteunen en laten opgroeien. Volgens de deelnemers heeft het kind in deze fase met name behoefte aan ondersteuning op gebied van de symptomen die ervaren worden door het kind vanwege het syndroom van Usher (bijv. bij de doof/slechthorendheid). Deelnemers geven aan dat een kind in deze fase met name behoefte heeft aan een verklaring en uitleg over de symptomen en problemen die hij/zij ervaart vanwege het syndroom van Usher. Zo geeft één van de deelnemers aan:

Man – “Ze hebben met de beste bedoelingen het voor mij verborgen gehouden, maar ik had op jonge leeftijd al heel veel klachten, en daardoor ging ik heel erg aan mezelf twijfelen, van ja misschien ben ik wel heel erg lomp of onhandig of...”

De deelnemers met het syndroom van Usher geven aan dat in de **kinder- en adolescentenfase nadat iemand zelf weet dat hij/zij het syndroom van Usher heeft** met name behoefte is aan informatie over het syndroom van Usher en daarnaast ondersteuning bij het creëren van een positief toekomstperspectief en hulp bij het maken van passende keuzes voor de toekomst. Bijvoorbeeld bij het maken van opleiding- en beroepskeuzes. Zowel de deelnemers met

het syndroom van Usher als de ouders van een kind met het syndroom van Usher gaven aan dat zij behoefte hadden aan ondersteuning bij het ontwikkelen van een positief toekomstperspectief. Hierbij geven zij aan dat het waardevol was om te horen van een professional en/of van lotgenoten dat het leven niet ophoudt nadat de diagnose is gesteld. Zo gaf één van de deelnemers het volgende aan:

Vrouw – “Ja, voor mij was het ook, net als voor iedereen, een klap om te horen dat je dus het syndroom van Usher hebt. En ook met name dat toekomstperspectief, die dan eigenlijk helemaal vervalft. Dus daarin was ik ook heel erg zoekende.”

De deelnemers met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher geven aan dat zij in de kinder- en adolescentenfase ook behoefte hadden aan lotgenotencontact. Lotgenoten wordt volgens de deelnemers belangrijk gevonden in de ondersteuning bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Zo kunnen lotgenoten, volgens de deelnemers, een voorbeeld geven van hoe om te gaan met het syndroom van Usher nadat de diagnose is gesteld. Daarnaast geven alle deelnemers ook aan dat lotgenotencontact een bron van sociale en emotionele steun is.

Deelnemers met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher geven echter ook aan dat zij of hun kind in de adolescentenfase moeite hebben (gehad) met het vragen om en accepteren van hulp van anderen/professionals. Zowel de deelnemers met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher gaven aan dat zichzelf of hun kind behoefte hadden aan ondersteuning bij de vragen: ‘Hoe vraag je ondersteuning van anderen?’ en ‘Hoe zorg je dat je zelf de regie houdt over welke hulp en ondersteuning je van anderen ontvangt?’.

De deelnemers met het syndroom van Usher geven aan dat in de **volwassenen-fase** de meeste behoefte is aan ondersteuning bij de belangrijkste levensgebieden, zoals werk, gezin en vrijetijdsbesteding. Volwassenen met het syndroom van Usher hebben volgens de deelnemers met name vragen over het vinden en/of behouden van werk, de invloed van het syndroom van Usher op het gezinsleven, energiehuishouding bij werk- en gezinsleven en bij het uitvoeren van sporten. Ook hebben volwassenen vragen over verschillende vormen van communicatie, zoals tactiele gebaren leren en technologische ondersteuningsvormen. Ook geven deelnemers met het syndroom van Usher aan dat in de volwassenenfase men behoefte heeft aan psychologische ondersteuning en ondersteuning bij het behouden van eigen regie. Zo gaf één van de deelnemers het volgende aan:

Vrouw – “Op die leeftijd hoefde je maar één keer zo te doen [knip met de vingers], en ik begon al te huilen. En nou ja, nu ben ik redelijk stabiel, en

ik weet gewoon mijn grenzen – dat helpt.”

Ervaringen met ondersteuning

Op basis van de focusgroepstudie zijn zowel positieve als negatieve ervaringen met de ondersteuning die de deelnemers hebben ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher opgehaald. Over het algemeen zijn er meer positieve dan negatieve ervaringen gedeeld door de deelnemers. Tijdens het analyseren zijn de resultaten ingedeeld in twee vormen van ondersteuning:

1. Informele ondersteuning (ondersteuning die wordt gegeven door mensen die dat niet vanuit hun beroep doen, bijvoorbeeld door mensen uit het sociale netwerk zoals familie, vrienden en lotgenoten),
2. Formele ondersteuning (ondersteuning die wordt gegeven door mensen die daarvoor zijn opgeleid, bijvoorbeeld maatschappelijk werkers, ambulante begeleiders, artsen en verpleegkundigen).

Tabel 8: aantal codes per ondersteuningsvorm

Ondersteuningsvorm	Positieve ervaringen (% van totaal aantal codes)	Negatieve ervaringen (% van totaal aantal codes)
Informele ondersteuning	76%	24%
Formele ondersteuning	47%	53%

Ervaringen met informele ondersteuning

Zoals te zien is in tabel 8 wordt door de deelnemers voor vormen van informele ondersteuning voor driekwart van de codes een positieve ervaring genoemd. Voorbeelden van genoemde positieve ervaringen met informele ondersteuning is het krijgen van een positief toekomstperspectief door lotgenotencontact, kunnen praten met lotgenoten over het leven met het syndroom van Usher en het ontvangen van praktische hulp van naasten. Verschillende deelnemers met het syndroom van Usher gaven aan dat informele ondersteuning hen over het algemeen een goed gevoel geeft en bijdraagt aan het idee dat ze er niet alleen voor staan. Zo legt één van de deelnemers bijvoorbeeld uit:

Vrouw – “Er is eigenlijk bijna weinig taboe, vind ik, onderling bij het Ushercafé. Dan merk je gewoon dat daar alleen maar mensen zitten die elkaar begrijpen. Eigenlijk wordt dan ook overal over gesproken.”

Negatieve ervaringen met informele ondersteuning worden door de deelnemers minder vaak genoemd. Voorbeelden van negatieve ervaringen waren te weinig ondersteuning vanuit familie of vrienden krijgen, dat

informele ondersteuning geleidelijk minder wordt als men ouder wordt en dat de omgeving niet altijd goed weet wat ze wel of niet kunnen zeggen over het syndroom van Usher. Zo geeft één van de deelnemers aan niet altijd behoefte te hebben om over het syndroom van Usher te praten met naasten en dat naasten soms minder aandacht besteden aan de andere leden van het gezin omdat ze te veel focussen op het syndroom van Usher:

Ouder – “... Ja, maar wat ik ook merk is van: ‘Hoe gaat het met [naam kind met het syndroom van Usher]?’ Ik zeg: Ja, met [naam kind met het syndroom van Usher] gaat het goed, maar met [naam kind zonder het syndroom van Usher] en [naam kind zonder het syndroom van Usher] gaat het ook goed hoor!”

Ervaringen met formele ondersteuning

Zoals te zien is in tabel 8 wordt door deelnemers over formele ondersteuning voor minder dan de helft van de codes een positieve ervaring genoemd. Voorbeelden van genoemde positieve ervaringen met formele ondersteuning zijn dat professionals fijn waren in de omgang, veel kennis hadden over het syndroom van Usher, veel ervaring hadden met het begeleiden van mensen met het syndroom van Usher en begrip toonden voor waar men met het syndroom van Usher tegenaan loopt. De deelnemers geven aan dat zij dankzij de ondersteuning van professionals een positiever beeld hadden gekregen bij het leven met het syndroom van Usher. Daarnaast gaven de deelnemers aan dat formele ondersteuning vaak leerzaam voor hen was en hen hielp bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Zo gaf één van de deelnemers aan:

Vrouw – “Die [professional] vertelde me, toen ik zei wat ik had, ‘ja maar dat is ook niet niks wat je hebt, je mag best een stapje terug doen, je hoeft niet alles te doen wat een ander ook doet.’ En dat was voor mij wel een eyeopener.”

Er zijn verschillende negatieve ervaringen met formele ondersteuning genoemd door deelnemers, zoals zelf veel moeten vertellen/uitleggen over het syndroom van Usher aan de professional, zelf veel moeten uitzoeken over beschikbare voorzieningen en ondersteuningsvormen en zelf vaak assertief moeten zijn om doorverwijzingen te regelen na het stellen van de diagnose. Daarnaast geven deelnemers aan negatieve ervaringen te hebben met professionals die zich enkel richten op één van de zintuiglijke beperkingen en niet op beide. Verder gaven meerdere deelnemers aan een negatieve ervaring te hebben met professionals die niet in staat waren om voor hen een positief toekomstbeeld te schetsen. Zo vertelde één van de deelnemers:

Man – “En ja, die [professional] zei ook tegen mij van ja, misschien moet je dan ook maar niet gaan studeren, maar moet je gewoon de wereld rondreizen als dat jouw passie is. Want je weet niet of je over vijf jaar, ja

hoe je dan bent, zeg maar.”

In alle focusgroepen werd ook gesproken over de manier waarop formele ondersteuning volgens de deelnemers geboden zou moeten worden. Deelnemers gaven aan dat het belangrijk is dat professionals open en eerlijk communiceren over de gevolgen van het syndroom van Usher en dat zij ondersteuning bieden op maat op basis van de hulpvraag van iemand met het syndroom van Usher. Daarnaast is het volgens de deelnemers belangrijk dat professionals kennis en ervaring hebben met het syndroom van Usher en inzicht hebben in de gevolgen van het hebben van een dubbele zintuiglijke beperking en in de terugkerende behoefte aan ondersteuning vanwege het progressieve karakter van het syndroom. Ook vinden de deelnemers dat professionals lotgenotencontact moeten faciliteren. Tenslotte geven alle deelnemers aan dat het ondersteunen van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher een systeemgerichte aanpak vraagt waarin dus ook de andere gezinsleden en naasten worden betrokken. Zo legt één van de deelnemers uit:

Ouder – “Ja, niet het kindje krijgt de diagnose, niet alleen de ouders krijgen de diagnose, maar broertjes en zusjes, opa’s en oma’s die zitten er omheen.”

Conclusie

Uit de focusgroepstudie blijkt dat de mensen die deelnamen aan de focusgroepen verschillende ondersteuningsbehoeften hebben gedurende verschillende fases van het leven. In de baby- en kinderfase vóórdat iemand met het syndroom van Usher zelf weet dat hij/zij het syndroom van Usher heeft hebben met name de naasten behoefte aan ondersteuning. Hierbij heeft men volgens de deelnemers met name behoefte aan het krijgen van informatie en kennis over het syndroom van Usher. In de kinder- en adolescentiefase, nádat iemand met het syndroom van Usher zelf weet dat hij/zij het syndroom van Usher heeft, hebben mensen met het syndroom van Usher en hun naasten volgens de deelnemers, ook behoefte aan ondersteuning bij het krijgen van informatie en kennis over het syndroom van Usher én rondom het creëren van een positief toekomstperspectief. In de volwassenenfase is er volgens de deelnemers met name behoefte aan ondersteuning op de levensgebieden als werk, gezinsleven en vrijetijdsbesteding. De deelnemers hebben positieve en negatieve ervaringen gedeeld over de ondersteuning die zij hebben ontvangen met het leren omgaan met het syndroom van Usher. Deelnemers noemden vaker positieve ervaringen bij informele ondersteuning dan bij formele ondersteuning. Daarnaast is de manier waarop formele ondersteuning wordt gegeven volgens de deelnemers met name belangrijk.

14 Deelstudie 4: Resultaten van de enquêtestudie (eerste fase)

Ontvangen ondersteuning

Uit de enquêtestudie blijkt dat niet alle deelnemers (mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher) ondersteuning (formele en informele ondersteuning) hebben ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Slechts 20 van de 39 deelnemers (51%) had deze ondersteuning ontvangen. Van de 20 deelnemers die ondersteuning ontvingen hadden negen deelnemers zowel kennis en informatie over het syndroom van Usher als handvatten ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Acht deelnemers hadden alleen kennis en informatie over het syndroom van Usher ontvangen. Drie deelnemers hadden alleen handvatten ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher.

Ondersteuning gericht op mensen met het syndroom van Usher

Zoals te zien is in tabel 9 geven de meeste deelnemers met het syndroom van Usher aan geen ondersteuning ontvangen te hebben. Van de deelnemers met het syndroom van Usher die wel ondersteuning hebben ontvangen, geven de meeste aan dat zij kennis en informatie over het syndroom van Usher én handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher hebben ontvangen.

Tabel 9: vormen van ondersteuning die deelnemers met het syndroom van Usher hebben ontvangen

Vormen van ondersteuning	Percentage van het totaal aantal deelnemers met het syndroom van Usher (N = 23)
Alleen kennis en informatie over het syndroom van Usher	5%
Alleen handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher	13%
Kennis en informatie over het syndroom van Usher + handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher	30%
Geen ondersteuning	52%

Ondersteuning gericht op ouders van een kind met het syndroom van Usher

Zoals te zien is in tabel 10 hebben de deelnemers die ouder zijn van een kind met het syndroom van Usher aangegeven voornamelijk ondersteuning ontvangen te hebben op het gebied van kennis en informatie over het syndroom van Usher. Slechts een kleine groep ouders van een kind met het syndroom van Usher heeft ondersteuning ontvangen in de vorm van handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Geen enkele ouder heeft kennis en informatie over het syndroom van Usher gehad én handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher ontvangen

Tabel 10: vormen van ondersteuning die ouders van een kind met het syndroom van Usher hebben ontvangen

Vormen van ondersteuning	Percentage van het totaal aantal deelnemers die ouder zijn van een kind met het syndroom van Usher (N = 16)
Alleen kennis en informatie over het syndroom van Usher	44%
Alleen handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher	13%
Kennis en informatie over het syndroom van Usher + handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher	0%
Geen ondersteuning	43%

Ondersteuning gericht op het kind met het syndroom van Usher

Zoals te zien is in tabel 11 hebben de meeste kinderen van de deelnemende ouders van een kind met het syndroom van Usher geen ondersteuning gehad bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. De kinderen die ondersteuning hebben ontvangen kregen in alle gevallen kennis en informatie over het syndroom van Usher.

Tabel 11: vormen van ondersteuning die kinderen met het syndroom van Usher hebben ontvangen

Vormen van ondersteuning	Percentage van het totaal aantal deelnemers met het syndroom van Usher (N = 16)
Alleen kennis en informatie over het syndroom van Usher	13%
Alleen handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher	0%
Kennis en informatie over het syndroom van Usher + handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher	13%
Geen ondersteuning	74%

Bronnen van ondersteuning

Mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher geven in de enquêtestudie aan verschillende vormen van ondersteuning te hebben ontvangen. Tijdens het analyseren zijn de resultaten van de enquêtestudie ingedeeld in twee vormen van ondersteuning:

1. Informele ondersteuning (ondersteuning die wordt gegeven door mensen die dat niet vanuit hun beroep doen, bijvoorbeeld door mensen uit het sociale netwerk zoals familie, vrienden en lotgenoten),
2. Formele ondersteuning (ondersteuning die wordt gegeven door mensen die daarvoor zijn opgeleid, bijvoorbeeld maatschappelijk werkers, ambulante begeleiders, artsen en verpleegkundigen).

Ten aanzien van informele ondersteuning noemden de deelnemers verschillende bronnen. De meest genoemde informele bronnen waren: lotgenoten, ouders/verzorgers, familieleden en vrienden. Volgens de deelnemers gaven deze bronnen zowel ondersteuning in de vorm van kennis en informatie over het syndroom van Usher als handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Deelnemers met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher noemden dezelfde informele bronnen. Deelnemers met het syndroom van Usher gaven wel vaker aan dat zij ondersteuning kregen van informele bronnen dan ouders van een kind met het syndroom van Usher.

Ten aanzien van bronnen van formele ondersteuning gaven de meeste deelnemers aan dat zij ondersteuning hadden ontvangen van een medisch specialist/arts (bijvoorbeeld een oogarts, KNO-arts of klinisch geneticus).

Deelnemers gaven aan dat deze ondersteuning voornamelijk bestond uit het ontvangen van kennis en informatie over het syndroom van Usher (bijv. filmpjes en folders over het syndroom van Usher). Daarnaast noemden enkele ouders van een kind met het syndroom van Usher ook ambulante begeleiders en maatschappelijk werkers als bron van formele steun. Volgens deze ouders gaven zij voornamelijk ondersteuning in de vorm van handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher (bijv. ondersteuning bij studiekeuze, inzicht in energiebalans, omgaan met rouw en verlies).

Ervaringen met ondersteuning

De deelnemers die informele ondersteuning hadden ontvangen waren met name positief over lotgenotencontact. Deelnemers gaven aan het als heel prettig te ervaren om met andere mensen met het syndroom van Usher en/of andere ouders van een kind met het syndroom van Usher onderling laagdrempelig met elkaar contact te hebben. Enkele deelnemers gaven overigens ook aan dat lotgenotencontact niet voor iedereen passend is, omdat het soms ook confronterend kan zijn voor een jong iemand met het syndroom van Usher en omdat lotgenoten niet altijd optimistisch zijn. Deelnemers onderstrepen ook het belang van ondersteuning van familie en vrienden. Volgens de deelnemers bieden naasten voornamelijk praktische ondersteuning, maar kunnen zij ook steunend zijn bij het creëren van een positief toekomstperspectief.

Alle deelnemers die formele ondersteuning hadden ontvangen gaven aan dat de houding en bejegening van de professional een cruciale factor is voor hoe zij uiteindelijk de ondersteuning ervaren. Zo gaven de deelnemers aan dat het belangrijk is dat professionals empathisch en eerlijk zijn over de gevolgen van het syndroom van Usher en dat zij het als prettig ervaren als een professional tijd maakt voor het bespreken van emoties tijdens de behandeling. Ook gaven deelnemers aan dat zij positievere ervaringen hadden met professionals die kennis en ervaring hadden met het syndroom van Usher. Deelnemers met negatieve ervaringen gaven aan dat dit met name kwam doordat de professional slechts aandacht had voor één van de twee zintuiglijk beperkingen in plaats van voor de dubbele zintuiglijke beperking. Deelnemers hadden ook aanbevelingen voor de formele ondersteuning. Zo was er bij meerdere deelnemers de wens voor een specifieke 'syndroom van Usher behandeling', waarbinnen formele en informele bronnen van ondersteuning samenwerken zoals een psycholoog, een maatschappelijk werker en lotgenoten. Ook zouden zij graag één aanspreekpunt willen die de zorg coördineert en korte lijnen heeft met alle verschillende organisaties die betrokken zijn bij het gezin. Daarnaast onderstrepen meerdere deelnemers dat de formele ondersteuning zich niet alleen zou moeten richten op de mensen met het syndroom van Usher maar ook op de naasten.

Conclusie

Het merendeel van de deelnemers met het syndroom van Usher had geen ondersteuning ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Dit gold ook voor de kinderen met het syndroom van Usher waarvan de ouders deelnamen aan de enquêtestudie. Iets meer dan de helft van de ouders met een kind met het syndroom van Usher had ondersteuning ontvangen. Zij die ondersteuning hadden ontvangen hebben voornamelijk kennis en informatie over het syndroom van Usher ontvangen. Slechts een beperkte groep deelnemers die ondersteuning had ontvangen gaf aan ondersteuning te hebben gekregen in de vorm van handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Deelnemers noemden verschillende bronnen van informele en formele ondersteuning. Deelnemers waren met name positief over lotgenotencontact als het gaat om informele ondersteuning. Bij formele ondersteuning gaven meerdere deelnemers aan dat zij ondersteuning hadden ontvangen van een medisch specialist/arts. Bij formele ondersteuningsbronnen is de houding en de bejegening van de professional volgens de deelnemers met name van belang en bepalend voor de mate waarin zij de ondersteuning als positief ervaren. Ook hadden de deelnemers enkele aanbevelingen voor de formele bronnen van ondersteuning. Er werden door deelnemers geen aanbevelingen gerapporteerd voor informele bronnen van ondersteuning.



15 Deelstudie 5: Resultaten van de inventarisatiestudie (eerste fase)

Door middel van de inventarisatiestudie zijn bestaande methodieken en interventies die in de praktijk gebruikt worden op het gebied van psycho-educatie bij mensen met een zintuiglijke beperking verzameld. Na analyse van de geïnventariseerde methodieken en interventies bleek geen van de bestaande interventies en methodieken specifiek ontwikkeld/geschikt om gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te ondersteunen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. De bestaande methodieken en interventies richten zich of op één van de twee zintuiglijke beperkingen (bijv. alleen de visuele beperking) of zijn ontwikkeld voor mensen met andere diagnoses (bijv. TOS of autisme).

De inventarisatie leverde wel interventies en methodieken op die mogelijk als voorbeeld gebruikt zouden kunnen worden voor het ontwikkelen van de materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Zoals de methodiek 'FF luisteren' (ontwikkeld door Koninklijke Auris Groep) en 'Natuurlijk Communiceren' (ontwikkeld door NSDSK). Ook leverde de inventarisatie twee publicaties op die mogelijk gebruikt konden worden ter ondersteuning bij het ontwikkelen van de materialen voor professionals (Gullacksen et al., 2011; Van de Molengraft, 2011).

Conclusie

Uit de inventarisatiestudie blijkt dat er geen bestaande methodieken en interventies* zijn die gebruikt kunnen worden in de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Wel leverde de inventarisatie interventies, methodieken en bronnen op die mogelijk gebruikt kunnen worden voor het ontwikkelen van materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.

** Op het moment van het uitvoeren van deze inventarisatiestudie werd alleen vanuit Koninklijke Kentalis psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher geboden. Omdat voor deze ondersteuning nog geen eenduidige methodiek is ontwikkeld, kwam deze ook niet naar voren uit deze inventarisatiestudie.*



16 Deelstudie 6: Resultaten van de expertstudie (eerste fase)

Definitie psycho-educatie syndroom van Usher

Op basis van de informatie opgehaald in de expertstudie zijn twee definities van psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher opgesteld: 1) voor het kind met het syndroom van Usher en 2) voor de ouders van het een kind met het syndroom van Usher.

Definitie psycho-educatie voor een kind met het syndroom van Usher

Psycho-educatie omvat een uitwisseling van kennis, informatie, inzicht en handelingsadviezen over het syndroom van Usher aan een kind met het syndroom van Usher en/of naaste betrokkenen.

Gezien de progressiviteit van het syndroom van Usher heeft de psycho-educatie een cyclisch karakter.

Psycho-educatie heeft tot doel dat het kind met het syndroom van Usher ondersteund wordt in het leren omgaan met het syndroom van Usher, door:

- Concrete kennisuitwisseling over het syndroom,
 - Het bieden van handvatten voor het verwerken van de diagnose en/of de gevolgen,
 - Het bewust laten worden van de mogelijkheden voor het leren omgaan met (fysieke, psychische, sociale en/of maatschappelijke) uitdagingen die het syndroom met zich meebrengt op een wijze die aansluit bij hun dagelijks leven,
 - Het bieden van handvatten die ingezet kunnen worden in het (leren) omgaan met beperkingen en hoe daarbij eigen kwaliteiten ingezet kunnen worden,
 - Het ondersteunen van een positief/realistisch toekomstperspectief
-

Definitie psycho-educatie voor ouders van een kind met het syndroom van Usher

Psycho-educatie omvat een uitwisseling van kennis, informatie, inzicht en handelingsadviezen over het syndroom van Usher aan ouder van een kind met het syndroom van Usher en/of naaste betrokkenen.

Gezien de progressiviteit van het syndroom van Usher heeft de psycho-educatie een cyclisch karakter.

Psycho-educatie heeft tot doel dat ouders van kinderen met het syndroom van Usher ondersteund worden in het leren omgaan met het syndroom van Usher, door:

- Concrete kennisuitwisseling over het syndroom,
 - Het bieden van handvatten voor het verwerken van de diagnose en/of de gevolgen,
 - Het bewust laten worden van de mogelijkheden voor het leren omgaan met (fysieke, psychische, sociale en/of maatschappelijke) uitdagingen die het syndroom met zich meebrengt op een wijze die aansluit bij hun dagelijks leven,
 - Het bieden van handvatten die ingezet kunnen worden in het (leren) omgaan met beperkingen en hoe daarbij eigen kwaliteiten ingezet kunnen worden,
 - Het ondersteunen van een positief/realistisch toekomstperspectief,
 - Het bieden van handvatten ter ondersteuning van het kind/de kinderen.
-

Thema's

Tijdens de expertmeetings zijn ook thema's opgehaald die van belang zijn bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De opgehaalde thema's zijn ingedeeld aan de hand van de domeinen van het ICF-model (World Health Organization, 2013):

1. functies & anatomische eigenschappen,
2. externe factoren,
3. activiteiten & participatie,
4. persoonlijke factoren.

De domeinen functies & anatomische eigenschappen

Functies: Functies zijn fysieke en mentale eigenschappen van het menselijk organisme.

Anatomische eigenschappen: Anatomische eigenschappen zijn de positie, aanwezigheid, vorm en continuïteit van onderdelen van het lichaam.

Onder het domein functies & anatomische eigenschappen valt volgens de experts het volgende: de mate van doofheid of slechthorendheid, de mate van de visuele beperking, de mate van evenwichtsproblematiek en de aanwezigheid van bijkomende lichamelijke en mentale problemen (co-morbiditeit). Hierbij gaven de experts aan dat het belangrijk is dat de professionals er rekening mee houden dat een beperking in horen én zien meer inhoudt dan slechts een optelsom van de twee zintuiglijke beperkingen ($1+1 > 2$). De thema's die volgens de experts van belang zijn bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher zijn de werking van de zintuigen (het oor en het oog) en informatie over de medische onderzoeken die mensen met het syndroom van Usher (kunnen) krijgen.

Het domein externe factoren

Externe factoren: Externe factoren zijn factoren vanuit de fysieke en sociale omgeving die iemands functioneren beïnvloeden.

Onder het domein externe factoren vallen volgens de experts het volgende: de aanwezigheid van andere individuen met het syndroom van Usher in het sociale netwerk, de rol van (sociale) media in de beeldvorming van het syndroom van Usher, welke hulpmiddelen gebruikt kunnen worden door mensen met het syndroom van Usher en welke hulpverlening iemand al heeft ontvangen. Daarnaast geven experts aan dat onder de externe factoren ook persoonlijke eigenschappen van de ouder(s) geplaatst kunnen worden, zoals de copingstijlen van ouders, de verwerkingsfase waarin ouders zitten, en persoonlijkheid van de ouders. Maar ook de sociaal-economische status en culturele achtergrond van het gezin vallen onder externe factoren volgens experts. De thema's die volgens de experts van belang zijn bij het bieden van de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher zijn de toegankelijkheid van informatie voor mensen met het syndroom van Usher, het betrekken van het netwerk bij de ondersteuning van het gezin,

het bespreken van erfelijkheid en mogelijk ervaren schuldgevoel van ouders, het bespreken van de mogelijkheid voor lotgenotencontact en het bespreken van de gevolgen van het syndroom van Usher op verschillende opvoedingsaspecten.

De domeinen activiteiten & participatie

Activiteiten: Activiteiten zijn onderdelen van iemands handelen.

Participatie: Participatie is iemands deelname aan het maatschappelijk leven.

Volgens experts is op basis van de domeinen activiteiten & participatie van belang dat professionals de psycho-educatie afstemmen op de mogelijkheden van het gezin met een kind met het syndroom van Usher, bijvoorbeeld op het taalniveau en moedertaal van het gezin. De thema's die volgens de experts van belang zijn voor de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher zijn het uitvoeren van activiteiten van het dagelijks leven, de mogelijkheden tot school, werk, sport en vrije tijd, oriëntatie & mobiliteit, zelfredzaamheid en het onderhouden van relaties en vriendschappen.

Het domein persoonlijke factoren

Persoonlijke factoren: Persoonlijke factoren zijn factoren die iemands individuele achtergrond beschrijven, zoals leeftijd, geslacht, sociale status, culturele achtergrond en levenservaring.

Onder het domein persoonlijke factoren vallen volgens de experts het volgende: copingstijl van het kind met het syndroom van Usher, de verwerkingsfase waarin hij/zij zit, de hulpvraag van het kind, hoe bekend het kind is met het syndroom van Usher, persoonlijkheid van het kind, snelheid van informatieverwerking van het kind, leeftijd van het kind, persoonlijke interesses en geslacht van het kind. De thema's die volgens de experts van belang zijn bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher zijn onder andere emotieregulatie, sociaal isolement, relaties en vriendschappen, zelfbeeld, identiteitsontwikkeling, rouw en verlies en eigen regie.

Overkoepelende factoren

Overkoepelende factoren: Overkoepelende factoren zijn factoren die niet direct in te delen zijn in de domeinen van het ICF-model maar die wel van belang zijn voor de psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.

De thema's die volgens de experts van belang zijn bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher zijn toekomstperspectief en fysieke en emotionele veiligheid.



17 Aanpak productiefase (tweede fase)

In de productiefase (tweede fase) is een plan gemaakt voor het ontwikkelen van de materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en is dit plan uitgevoerd. De productiefase had als doel materialen te ontwikkelen die eenduidigheid creëren in de manier waarop psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher wordt geboden.

Plan voor ontwikkeling

Op basis van de probleemanalyse in de oriëntatiefase (eerste fase) werd vastgesteld dat er behoefte was aan ondersteuning voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher, dat er op dat moment geen specifieke/ geschikte methodieken en interventies beschikbaar waren voor professionals om te gebruiken in hun ondersteuning aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en dat er daarom een behoefte is aan het ontwikkelen van materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met het syndroom van Usher.

Na het bespreken van de resultaten van de oriëntatiefase met het projectteam en de klankbordgroep werd er consensus bereikt over een plan voor het ontwikkelen van de materialen: hoe deze ontwikkeld zouden worden, wanneer en in welke volgorde. Het plan voor het ontwikkelen van de materialen richtte zich op het ontwikkelen van twee soorten materialen, namelijk:

1. Het ontwikkelen van een handreiking voor professionals
2. Het ontwikkelen van een trainingsprogramma voor professionals

Deze materialen werden ontwikkeld op basis van de informatie opgehaald in de oriëntatiefase (literatuurstudie, interviewstudie, focusgroepstudie, enquêtestudie, inventarisatiestudie en expertstudie). Het ontwikkelen van de materialen werd uitgevoerd in de periode tussen januari 2021 tot en met maart 2021.

Ontwikkeling materialen

1. Ontwikkeling handreiking voor professionals

Om de handreiking 'Coping met Usher' te ontwikkelen zijn de resultaten van de deelstudies in de oriëntatiefase gebruikt: o.a. de bestaande psycho-educatie methodieken, interventies en bronnen opgehaald middels de inventarisatiestudie en de opgehaalde thema's uit de expertstudie. Aanvullend zijn ook de professionals die reeds psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher bevraagd naar hun werkwijze. Op basis van deze informatiebronnen zijn de volgende hoofdstukken van de handreiking ontwikkeld: 1) inleiding, 2) handreiking psycho-educatie: visie en basisprincipes, 3) onderbouwing en theoretisch kader, 4) de professional, 5) overzicht van belangrijke thema's, 6) psycho-educatie voor kinderen/jongeren met het syndroom van Usher in de leeftijd van 8-18 jaar (vier bouwstenen), 7) psycho-educatie voor ouders van een kind met het syndroom van Usher in de leeftijd van 0-18 jaar (vier bouwstenen), 8) overzicht van inzetbare en aanvullende methodieken, interventies en bronnen.

2. Ontwikkeling trainingsprogramma voor professionals

Om professionals te ondersteunen bij het gebruik van de handreiking is er ook een trainingsprogramma ontwikkeld voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Voor het ontwikkelen van de training zijn de resultaten uit de deelstudies van de oriëntatiefase gebruikt: o.a. de ondersteuningsadviezen uit de literatuurstudie en de adviezen over de manier waarop formele ondersteuning gegeven zou moeten worden volgens mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher afkomstig uit de interviewstudie, focusgroepstudie en de enquêtestudie. Op basis van deze informatiebronnen zijn de volgende onderdelen van het trainingsprogramma ontwikkeld: 1) een workshop gericht op het leren gebruiken van de handreiking 'Coping met Usher', 2) intervisie voor de professionals, 3) samenwerking met ervaringsdeskundigen die als vraagbaak fungeren bij het bieden van psycho-educatie.

Werkwijze ontwikkelen materialen

Voor het ontwikkelen van de materialen maakten twee onderzoekers en een professional uit het projectteam op basis van de hierboven beschreven informatiebronnen een eerste opzet. Deze eerste opzet is vervolgens aangevuld door de overige leden van het projectteam. De opzet werd aangepast door de onderzoekers van het projectteam op basis van de gegeven input. Vervolgens werd de nieuwe opzet opnieuw voorgelegd aan het gehele projectteam. Onderdelen van de materialen waren pas klaar als er consensus over de inhoud werd bereikt met het gehele projectteam. In totaal zijn er twee feedbackrondes met het projectteam geweest voor het ontwikkelen van de materialen. Vervolgens zijn de materialen voorgelegd aan de klankbordgroep van het project. Ook zij konden aanvullingen geven op de ontwikkelde

materialen. Dat leverde een nieuwe versie op van de materialen. Nadat de het projectteam en de klankbordgroep consensus hadden bereikt op deze laatste versie van de materialen, zijn de materialen definitief gemaakt en gedeeld met de professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.



18 Resultaten productiefase (tweede fase)

De resultaten van de productiefase zijn de ontwikkelde materialen voor de psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De inhoud van de ontwikkelde materialen worden hieronder kort toegelicht.

Handreiking 'Coping met Usher'

Basisprincipes: In de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher staat een gezinsgerichte, vraaggerichte aanpak centraal. De professional stemt de inhoud van de psycho-educatie op maat af op de hulpvraag, wensen en behoeften van het gezin. Daarbij houdt de professional rekening met de omgeving van het kind met het syndroom van Usher en betreft, waar gewenst, naasten in de behandeling. In dit proces gebruikt de professional de handreiking als bron om inhoud te geven aan de psycho-educatie. Deze basisprincipes zijn opgenomen in de handreiking.

Bouwstenen: In de handreiking worden de vier bouwstenen van de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher beschreven. De bouwstenen geven concrete handvatten voor professionals hoe zij de psycho-educatie kunnen aanbieden:

1. De eerste bouwsteen is **kennismaking**. Professionals beginnen bij deze bouwsteen. Professionals werken door middel van deze bouwsteen aan het opbouwen van een behandelrelatie met het gezin. Centraal in deze bouwsteen staat het kijken naar wie de gezinsleden zijn, luisteren naar wat zij al weten over het syndroom van Usher, kijken naar hoe zij omgaan met de gevolgen van het syndroom van Usher en achterhalen welke thema's rondom het syndroom van Usher op dat moment spelen in het gezin.
2. De tweede is **het bieden van informatie en kennis** over wat het syndroom van Usher is. Professionals onderzoeken met deze bouwsteen wat het syndroom van Usher op dat moment voor het gezin betekent. Het bieden van informatie en kennis en het creëren van bewustwording over de gevolgen van het syndroom van Usher wordt door de professionals stapsgewijs gedaan. Hierbij houdt de professional rekening met het ontwikkelingsniveau van het kind en andere externe factoren van het gezin (bijv. de culturele achtergrond van het gezin). Professionals werken aan deze bouwsteen door aan te sluiten bij de aanwezige kennis en ervaring van het gezin over het syndroom van Usher. Vervolgens wordt van daaruit nieuwe kennis en informatie gegeven en vaardigheden aangereikt

- gerelateerd aan het creëren van bewustwording over de gevolgen van het syndroom van Usher.
3. De derde bouwsteen is het bieden van inzicht in wat op dat moment de impact van het syndroom van Usher is op het gezin. Professionals onderzoeken met deze bouwsteen welke handvatten gezinnen nodig hebben om te leren omgaan met het syndroom van Usher in de hedendaagse praktijk. Waar lopen gezinsleden nu tegenaan? Waar zouden ze handvatten bij willen krijgen? De professionals werken aan deze bouwsteen door gesprekken te hebben met gezinsleden over ervaringen in het dagelijks leven en wat deze ervaringen met de gezinsleden doen. Hierdoor krijgen zij inzicht in welke handvatten de gezinsleden op dit moment nodig hebben. Deze handvatten reiken professionals aan door het versterken en uitbreiden van huidige vaardigheden van de gezinsleden. Hier kan bijvoorbeeld aandacht zijn voor effectieve en ineffectieve coping strategieën. Deze bouwsteen wordt opgepakt nadat bouwsteen één en twee zijn behandeld, tenzij er een dringende situatie is in het gezin waarvoor gezinsleden direct handvatten nodig hebben.
 4. De vierde bouwsteen is het bieden en stimuleren van een positief toekomstperspectief bij het syndroom van Usher. Professionals onderzoeken met deze bouwsteen eerst wat het huidige toekomstperspectief is. Vervolgens wordt het toekomstperspectief besproken en biedt de professional handvatten aan het gezin die aansluiten bij het huidige toekomstperspectief en verwachtingen van het gezin gericht op het leren omgaan met het steeds veranderende toekomstperspectief. Deze bouwsteen wordt opgepakt nadat de andere bouwstenen zijn behandeld, tenzij er een dringende situatie is in het gezin waarvoor gezinsleden direct handvatten nodig hebben.

Thema's: Er zijn verschillende thema's die terug kunnen komen in de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Een set aan thema's is uitgewerkt in de handreiking. Deze set is niet uitputtend en kan door professionals gebruikt worden ter inspiratie en als naslagwerk. Ontbrekende thema's kunnen in een latere fase nog worden toegevoegd aan de handreiking.

Trainingsprogramma 'Coping met Usher'

Workshop 'handreiking gebruiken': Het eerste onderdeel van het trainingsprogramma is een workshop voor professionals over hoe zij de handreiking kunnen gebruiken in de praktijk. Het doel van de workshop was: alle professionals kunnen de handreiking op dezelfde manier gebruiken tijdens het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De workshop duurde 2 uur en werd gegeven door een professional uit het projectteam. De workshop bestond uit 3 onderdelen:

1. Het voorstellen van aanwezigen met extra aandacht voor de ervaringsdeskundigen die de rol van vraagbaak op zich namen,
2. Het doorlopen van de handreiking aan de hand van een casus,
3. Het beantwoorden van vragen over de handreiking.

De aanwezige professionals gingen bij het tweede onderdeel zelf aan de slag met een casus uit hun eigen praktijk.

Intervisie: Het tweede onderdeel van het trainingsprogramma voor professionals is het bijwonen van intervisiebijeenkomsten. Deze intervisiebijeenkomsten werden één keer per kwartaal georganiseerd. Het doel van de intervisiebijeenkomsten was: kennis en informatie uitwisselen over het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en bijdragen aan de zelf-effectiviteit van de professionals. Ook werd er in de intervisiebijeenkomsten aandacht besteed aan de houding van de professional en diens bejegening van de gezinnen die de psycho-educatie ontvangen. Iedere intervisiebijeenkomst duurde 2 uur. De intervisiebijeenkomsten werden geleid door een ervaren gespreksleider (een onderzoeker van het projectteam). Bij de intervisiebijeenkomsten waren daarnaast een professional ervaren in het geven van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en ervaringsdeskundigen uit het projectteam aanwezig. De intervisiebijeenkomsten werden ingericht aan de hand van de 'vijf stappen methode' van De Haan (2001). De vijf stappen zijn 1) vraaginstructie, waar de inbrenger zijn vraag introduceert en kort toelicht, 2) probleemverkenning, waar groepsleden de vraag verkennen door vragen te stellen, 3) probleemdefinitie, waar groepsleden probleempunten formuleren en de inbrenger zijn/haar probleem herformuleert, 4) advisering, waar de groepsleden advies formuleren voor de inbrenger en 5) evaluatie, waar alle deelnemers het proces, ervaring en effecten evalueren.

Samenwerking met ervaringsdeskundigen: Het derde onderdeel van het trainingsprogramma was de mogelijkheid voor professionals om samen te werken met ervaringsdeskundigen tijdens het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Uit de resultaten van de oriëntatiefase bleek dat contact met lotgenoten een belangrijke ondersteuningsbron is voor mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher. Om die reden is samenwerking met de ervaringsdeskundigen van het projectteam een onderdeel geworden van het trainingsprogramma voor professionals. Professionals maakten tijdens de workshop kennis met de ervaringsdeskundigen en hadden tijdens het uitvoeren van de psycho-educatie de mogelijkheid om vragen te stellen aan de ervaringsdeskundige (bijvoorbeeld over het syndroom van Usher), te sparren met de ervaringsdeskundige (bijvoorbeeld over een bepaald thema: hoe gaat hij/zij daarmee om?) en hen te contacteren wanneer het gezin behoefte had aan lotgenotencontact (zij konden dan zelf in contact komen met het

gezin of mensen uit hun netwerk hiervoor benaderen). De samenwerking met de ervaringsdeskundigen bood de professionals de mogelijkheid om hun kennis over het syndroom van Usher te vergroten en de handvatten die zij gezinnen bieden bij het leren omgaan met het syndroom van Usher te bespreken.

19 Aanpak uitvoeringsfase (derde fase)

De materialen die zijn ontwikkeld voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher zijn in de uitvoeringsfase (derde fase) ingezet in de zorgpraktijk van Koninklijke Kentalis, op dat moment de enige organisatie in Nederland waar psycho-educatie werd geboden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De uitvoering vond plaats middels een pilotstudie. De opzet van dit onderzoek wordt hieronder beschreven.

Doel en design

Het doel van de pilotstudie was het implementeren en evalueren van de ontwikkelde materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De resultaten van de pilotstudie droegen bij aan het beantwoorden van deelvragen 4 en 5. Er werd verwacht dat op basis van de resultaten van de pilotstudie aanbevelingen konden worden gedaan voor het optimaliseren van de ontwikkelde materialen.

Opzet pilotstudie

De pilotstudie bestond uit het uitvoeren van het trainingsprogramma en het in gebruik nemen van de handreiking 'Coping met Usher'. Allereerst volgden de professionals de workshop. Vervolgens startten de professionals de psycho-educatie op met de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en gebruikten daarbij de handreiking. Tijdens het uitvoeren van de psycho-educatie sloten de professionals aan bij meerdere intervisiebijeenkomsten en maakten zij, indien wenselijk, gebruik van de samenwerking met ervaringsdeskundigen. De gezinnen werden zes maanden na de start van de psycho-educatie uitgenodigd voor het evaluatieonderzoek. De professionals namen deel aan het evaluatieonderzoek nadat de deelname van het gezin aan het evaluatieonderzoek was afgerond.

De pilotstudie bestond uit drie evaluatieonderdelen:

1. Evaluatie tevredenheid gezinnen: vragenlijststudie gezinnen,
2. Evaluatie tevredenheid professionals: vragenlijststudie professionals,
3. Evaluatie tevredenheid professionals: interviewstudie professionals.

Deelnemers

Er hebben twee groepen deelnemers meegedaan aan de pilotstudie:

1. Gezinnen (kinderen met het syndroom van Usher en hun ouders) die de psycho-educatie ontvingen,
2. Professionals die psycho-educatie aanboden aan de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Aan de pilotstudie konden alleen professionals van Koninklijke Kentalis meedoen, omdat ten tijde van de pilot Koninklijke Kentalis de enige organisatie in Nederland was die psycho-educatie bood aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.

Gezinnen

De gezinnen met een kind met het syndroom van Usher die meededen aan de pilotstudie waren onderverdeeld in drie groepen deelnemers:

1. Ouders van kinderen in de leeftijd van 0 tot 8 jaar,
2. Ouders van kinderen in de leeftijd van 8 tot en met 18 jaar,
3. Kinderen in de leeftijd van 12 tot en met 18 jaar.

Tijdens *de werving* werd er gestreefd naar deelname van 6 tot 12 deelnemers, met in iedere deelnemersgroep minimaal 3 gezinnen. De volgende inclusiecriteria voor deelname van gezinnen aan de pilotstudie waren opgesteld: 1) de diagnose van het syndroom van Usher van het kind moest door een specialist zijn vastgesteld; 2) gezinnen moesten woonachtig in Nederland zijn; 3) kinderen moesten in de leeftijd van 0 tot en met 18 jaar zijn; 3) gezinnen moesten een hulpvraag hebben of een behoefte aan ondersteuning bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Exclusiecriteria waren: 1) niet de Nederlandse taal of Nederlandse gebarentaal beheersen; 2) een zeer complexe zorgvraag hebben; 3) eerder hebben deelgenomen aan één van de deelstudies in de oriëntatiefase van het project 'Coping met Usher'.

De werving van de gezinnen liep van januari 2021 tot maart 2021. Bij de werving van de gezinnen is gebruik gemaakt van een gelegenheidssteekproef (convenience sampling). Dat hield in dat deelnemers benaderd werden via Radboudumc, (online) berichten die geplaatst werden op sociale media, via Stichting Ushersyndroom en via Koninklijke Kentalis. Potentiële gezinnen konden via e-mail hun interesse voor deelname aan de pilotstudie kenbaar maken. Indien de gezinnen aan de inclusie- en exclusiecriteria voldeden, werden ze door een onderzoeker van het projectteam uitgenodigd voor deelname aan de pilotstudie. Potentiële gezinnen ontvingen vervolgens via e-mail een informatiebrief en een toestemmingsformulier. In totaal hebben zeven potentiële gezinnen zich aangemeld voor de pilotstudie. Twee van de zeven gezinnen voldeden niet aan de criteria en hebben daarom niet meegedaan aan het onderzoek.

Aan de pilotstudie deden vijf gezinnen met in totaal zes kinderen mee. In tabel 12 is te zien dat de meeste deelnemers in de eerste deelnemersgroep vielen, namelijk ouders van kinderen in de leeftijd van 0 tot 8 jaar. De gemiddelde leeftijd van de kinderen was 7 jaar (min 1 jaar; max 12 jaar). Bij alle kinderen was het syndroom van Usher type 2 vastgesteld. Van de 6 kinderen waren er 3 jongens en 3 meisjes. De gezinnen werden begeleid door professionals vanuit de drie verschillende regio's in Nederland (drie locaties van Koninklijke Kentalis: Zoetermeer, Haren en Sint-Michielsgestel).

Tabel 12: aantal kinderen per deelnemersgroep

Participantgroepen	Aantal kinderen
Ouders van kinderen in de leeftijd van 0 tot 8 jaar	3
Ouders van kinderen in de leeftijd van 8 tot en met 18 jaar	2
Kinderen in de leeftijd van 12 tot en met 18 jaar	1

Professionals

Er waren de volgende inclusiecriteria voor professionals voor deelname aan de pilotstudie opgesteld: 1) de professionals moesten werkzaam zijn in de extramurale zorg bij Koninklijke Kentalis; 2) de professionals moesten een functie hebben van waaruit psycho-educatie kon worden aangeboden; 3) de professionals moesten enige ervaring hebben met het begeleiden van gezinnen met een kind met een beperking in horen (én zien); 4) de professionals moesten woonachtig zijn in Nederland. Exclusiecriteria waren: 1) niet de Nederlandse taal of Nederlandse gebarentaal beheersen; 2) geen enkele kennis hebben van het syndroom van Usher. Om zeker te zijn dat voldoende gezinnen konden participeren in de pilotstudie was de beoogde steekproef 6 professionals waarvan 2 professionals per locatie (Koninklijke Kentalis biedt de psycho-educatie vanuit 3 locaties in Nederland: de locatie Zoetermeer, Haren en Sint-Michielsgestel).

De werving van de professionals liep van januari 2021 tot maart 2021. De professionals werden geworven via een doelgerichte steekproef (purposive sampling). Dit hield in dat op basis van de inclusie- en exclusiecriteria professionals zijn benaderd voor deelname aan het onderzoek. De professionals zijn via e-mail benaderd voor een online informatiebijeenkomst over de pilotstudie. Na de informatiebijeenkomst konden professionals ook nog een één-op-één gesprek aanvragen bij de onderzoeker van het projectteam. Tijdens de bijeenkomst en deze gesprekken werd uitleg gegeven over de pilotstudie. De professionals konden zich hierna per e-mail aanmelden voor deelname. In totaal hebben 9 professionals zich aangemeld voor het onderzoek. Op basis van de inclusie- en exclusiecriteria vielen er 3 professionals af.

In totaal deden 6 professionals mee aan de pilotstudie. In tabel 13 zijn de achtergrondkenmerken van de professionals weergegeven.

Tabel 13: achtergrondkenmerken van de professionals die deelnamen aan de pilotstudie

Kenmerken professionals	Professionals (N = 6)
Gemiddelde leeftijd	49 jaar (min 41 jaar; max 63 jaar)
Gemiddeld jaren werkzaam bij Koninklijke Kentalis	17 jaar (min 10 jaar; max 25 jaar)
Hoogst behaalde opleiding	83% VWO en 17% HBO
Gemiddeld aantal cliënten met een beperking in horen én zien per jaar in begeleiding	4 cliënten (min 0 cliënten; max 8 cliënten)
Gemiddeld aantal keer per jaar psycho-educatie aan cliënten met een beperking in horen (<i>én zien</i>)	10 keer per jaar (min 2 keer; max 25 keer)
Gemiddeld aantal keer per jaar psycho-educatie aan cliënten met een beperking in horen én zien	1 keer per jaar (min 0 keer; max 2 keer)
Gemiddeld cijfer eigen beoordeling expertise met doof en slechthorendheid	8.3 uit 10 (min 6.0; max 9.0)
Gemiddeld cijfer eigen beoordeling expertise met een beperking in horen én zien	6.5 uit 10 (min 2.0; max 8.0)
Gemiddeld cijfer eigen beoordeling expertise met het syndroom van Usher	6.3 uit 10 (min 2.0; max 9.0)

Instrumenten

Vragenlijststudie gezinnen

De vragen in de evaluatievragenlijst voor gezinnen waren gericht op het meten van de tevredenheid van de gezinnen met de ontvangen ondersteuning. De vragenlijst BEOordelingsSchaal voor Tevredenheid en Effect (BESTE; De Meyer et al., 2004) werd gebruikt om de concepten 'ervaren effectiviteit', 'duur' en 'tevredenheid' te meten. Daarnaast werd de C-toets (Jurrius et al., 2007; Ramos et al., 2006) gebruikt om tevredenheid met de behandeling te meten. Er werden drie versies van de vragenlijst voor gezinnen gemaakt:

1. Een vragenlijst voor ouders van kinderen in de leeftijd van 0 tot 8 jaar,
2. Een vragenlijst voor ouders van kinderen in de leeftijd van 8 tot en met 18 jaar,
3. Een vragenlijst voor kinderen in de leeftijd van 12 tot en met 18.

In totaal bestonden vragenlijsten 1 en 3 uit 12 vragen en vragenlijst 2 uit 14 vragen.

Vragenlijststudie professionals

De vragen in de evaluatievragenlijst voor professionals waren gericht op het meten van de tevredenheid van professionals met de gegeven ondersteuning. De vragenlijst BEOordelingsSchaal voor Tevredenheid en Effect (BESTE; De Meyer et al., 2004) werd gebruikt om de concepten 'ervaren effectiviteit', 'duur' en 'tevredenheid' te meten. De vragen om 'context', 'dosis ontvangen', 'programma design', en 'ervaren ondersteuning' te meten werden gebaseerd op vragenlijsten gebruikt in de onderzoeken van Zijlstra et al. (2022) en Segaar et al. (2006). Om de sociale validatie te meten zijn de vragenlijsten zoals beschreven in Damen et al. (2021) en Seys (1987) als basis gebruikt. In totaal bestond de vragenlijst uit 59 vragen.

Interview professionals

De interviewstudie met professionals bestond uit een semigestructureerd interview. Het interview bestond uit vier delen en 12 hoofdvragen. Het eerste deel bestond uit 2 opstartende open vragen over het gezin die de professional ondersteunde. Het tweede deel bestond uit 4 hoofdvragen en richtte zich op de door de professional ervaren zelfeffectiviteit tijdens het uitvoeren van de psycho-educatie door middel van de ontwikkelde materialen. Het derde deel bestond uit 4 hoofdvragen en richtte zich op het evalueren van het trainingsprogramma. Het vierde deel bestond uit 2 hoofdvragen waarmee naar de aanbevelingen voor de ontwikkelde materialen werd gevraagd.

Procedure

Nadat de deelnemende gezinnen een informatiebrief hadden gekregen en een toestemmingsformulier hadden ondertekend werden zij gekoppeld aan één van de professionals. Ook de professionals hadden voorafgaand aan de studie een informatiebrief ontvangen en een toestemmingsformulier ondertekend. De gezinnen werden vervolgens gekoppeld aan de professionals op basis van de woonplaats. Na de koppeling konden de professionals starten met de psycho-educatie waarbij zij gebruikt maakten van de handreiking die ontwikkeld is binnen dit project.

Evaluatieonderzoek

Gezinnen: De evaluatievragenlijsten voor de gezinnen werden digitaal aangeboden via het online vragenlijstprogramma MWM2. Voorafgaand aan het verzenden van de evaluatievragenlijsten werden deze getest door twee ervaringsdeskundigen uit het projectteam en daarnaast ook door een externe onderzoeker (geen lid van het projectteam). Op basis van hun feedback werden de vragenlijsten verder aangescherpt. De gezinnen ontvingen zes

maanden na de start van de psycho-educatie via e-mail de evaluatievragenlijst. In de e-mail stond de URL naar de vragenlijst en een uniek wachtwoord gekoppeld aan het gezin om in te loggen. Gezinnen kregen drie weken de tijd om de vragenlijst in te vullen. De gezinnen die de vragenlijst volledig hadden ingevuld, kregen een bevestiging per email hiervan. De vragenlijsten werden ingevuld in de periode oktober 2021 tot en met december 2021. Het invullen van de evaluatievragenlijst door de gezinnen duurde tussen de 3 en 8 minuten.

Professionals vragenlijst: De evaluatievragenlijst voor de professionals werd digitaal aangeboden via het online vragenlijstprogramma MWM2. Voorafgaand aan het verzenden van de evaluatievragenlijst werd deze getest door drie professionals en twee externe onderzoekers (allen geen lid van het projectteam). Op basis van hun feedback werd de vragenlijst verder aangescherpt. De professionals ontvingen via e-mail de vragenlijst nadat het aan hun gekoppelde gezin de vragenlijst hadden ingevuld. In de e-mail stond de URL naar de vragenlijst en een uniek wachtwoord gekoppeld aan de professional om in te loggen. De professionals kregen vier weken de tijd om de vragenlijst in te vullen. De professionals die de vragenlijst volledig hadden ingevuld, kregen een bevestiging per email hiervan. De vragenlijsten werden ingevuld in de periode november 2021 tot en met december 2021. Het invullen duurde gemiddeld 45 minuten.

Professionals interview: Nadat de professionals de vragenlijst hadden ingevuld kregen zij een uitnodiging voor het inplannen van het interview. De interviews werden uitgevoerd door een student van de Vrije Universiteit Amsterdam onder begeleiding van twee (senior) onderzoekers van het projectteam. Voorafgaand aan het afnemen van de interviews zijn twee proefinterviews afgenomen bij twee professionals (allebei geen lid van het projectteam). Op basis van hun feedback werd het interview verder aangescherpt. De interviews zijn vervolgens online via het beeldbelprogramma Zoom afgenomen door de student. De interviews duurden gemiddeld 68 minuten. De interviews werden afgenomen in de periode van december 2021 en januari 2022. Van de interviews werd een audio-opname gemaakt die verbatim door de student zijn getranscribeerd. De transcripten zijn vervolgens ter controle voorgelegd aan de professional, waarna twee transcripten zijn aangepast op verzoek van de desbetreffende professionals. Alle transcripten zijn vervolgens goedgekeurd.

Data-analyse

Vragenlijsten gezinnen en professionals: De kwantitatieve data van de vragenlijsten zijn geanalyseerd door middel van descriptieve analyses door een onderzoeker van het projectteam in Excel. De kwalitatieve data zijn door dezelfde onderzoeker geanalyseerd in Word. Van de kwalitatieve data zijn samenvattingen gemaakt van de gegeven antwoorden.

Interviews professionals: De interviews zijn geanalyseerd door de student onder begeleiding van twee (senior) onderzoekers van het projectteam. Om de transcripten, in totaal 81 pagina's, te analyseren is De Gids Kwalitatieve Analyse van Leuven (QUAGOL) gehanteerd (Dierckx de Casterlé et al., 2012). Dit houdt in dat het analytisch proces startte bij het vertrouwd raken met de data door het lezen van de transcripten. Volgens het principe van open coderen hebben de student en een onderzoeker van het projectteam onafhankelijk van elkaar codes verbonden aan relevante tekst in de transcripten. De codes bleven dicht bij de woorden van de professionals. Het proces van coderen en verschillen in codes hebben de codeurs besproken in vier online besprekingen. Om de betrouwbaarheid tussen de codeurs te vergroten is 25% van de totale data dubbel gecodeerd (O'Connor & Joffe, 2020). De twee sets van open coderingen zijn vergeleken, hiervoor is de Kappa per code berekend. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid bleek uitstekend met een gemiddelde Kappa van .95 (Landis & Koch, 1977). Middels axiaal coderen zijn de eerder toegekende codes samengevoegd binnen een overkoepelende code om tot enkele thema's te komen. Ten slotte zijn de thema's aan elkaar verbonden en samengevat. In totaal bestond de codeboom uit 83 codes. De kwalitatieve analyses zijn uitgevoerd met behulp van ATLAS.ti (versie 8.1.3; Atlas.ti 2019).



20 Resultaten Uitvoeringsfase (derde fase)

De resultaten van de uitvoeringsfase zijn de resultaten van de pilotstudie. Deze worden hieronder kort toegelicht.

Evaluatie tevredenheid gezinnen (vragenlijst)

Het oordeel van de gezinnen over de ontvangen psycho-educatie was positief. Zij gaven de psycho-educatie een gemiddeld rapportcijfer van 7.4 op een schaal van 10 (SD = 1.59). De gezinnen gaven de professionals die de psycho-educatie boden een gemiddeld rapportcijfer van 8.1 op een schaal van 10 (SD = 1.46). Van de 7 gezinnen gaven 5 gezinnen aan verandering te hebben opgemerkt in hun eigen gedrag als gevolg van de psycho-educatie die zij ontvingen. Van de 7 gezinnen gaven 4 gezinnen daarnaast aan een verandering in het functioneren van het gezin te hebben ervaren als gevolg van de psycho-educatie. Gezinnen scoorden de ervaren effectiviteit van de psycho-educatie gemiddeld een 2.8 op een schaal 1 op 5 (SD = 0.82). Van de 7 gezinnen gaven 5 gezinnen aan dat zij de psycho-educatie aanraden aan andere gezinnen, 1 gezin gaf aan de psycho-educatie niet aan te raden aan andere gezinnen en één gezin wist niet zeker of zij de psycho-educatie zou aanraden aan andere gezinnen. Verder gaven de gezinnen in de open antwoorden aan dat zij tevreden waren over de professional van wie ze de psycho-educatie hadden ontvangen. De gezinnen gaven aan dat zij hun zorgen kwijt konden bij de professional en dat de professional veel kennis had van het syndroom van Usher. Verder gaven de gezinnen aan dat de psycho-educatie voor meer rust had gezorgd, dat ze zich minder zorgen maakten over de toekomst van hun kind en dat ze handvatten hadden ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher.

Evaluatie tevredenheid professionals (vragenlijst)

Alle professionals zouden de psycho-educatie aanraden aan andere gezinnen. De professionals beoordeelden de ervaren effectiviteit van de psycho-educatie gemiddeld met een 3.7 op een schaal van 5 (SD = 0,93).

Beoordeling ontwikkelde materialen algemeen: De professionals gaven aan dat zij van alle ontwikkelde materialen gebruik hadden gemaakt tijdens de pilotstudie. De professionals waren positief over de ontwikkelde materialen en vonden ze geschikt voor de praktijk. Zij gaven aan dat ze de handreiking

overzichtelijk, begrijpelijk en leerzaam vonden. Voor de uitvoerbaarheid van psycho-educatie met behulp van de ontwikkelde materialen werd door de professionals een gemiddelde score van 3.1 gegeven op een schaal van 5 (SD = 0.39). Dat wil zeggen dat de professionals dankzij de ontwikkelde materialen goed in staat waren om psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te geven. De professionals gaven hoge scores voor de mate van flexibiliteit waarmee (onderdelen van) de ontwikkelde materialen ingezet konden worden. Lagere scores werden gegeven voor het kunnen achterhalen van het doel en de hulpvraag van het gezin en voor het kunnen aanleren van nieuwe vaardigheden aan het gezin en de omgeving. Van de ontwikkelde materialen vonden de professionals de intervisiebijeenkomsten het meest effectief (gemiddelde effectiviteitsscore = 4.4 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.67), vervolgens de vier bouwstenen uit de handreiking (gemiddelde effectiviteitsscore = 4.3 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.27) en vervolgens de samenwerking met de ervaringsdeskundigen (gemiddelde effectiviteitsscore = 4.0 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.4). De professionals gaven aan dat het gebruik van de materialen voor een positieve verandering had gezorgd in hun kennis, vaardigheden en aanpak.

De ontwikkelde materialen hadden volgens de professionals met name voor verandering gezorgd in hun kennis over de problemen van gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en over belangrijkste thema's die spelen bij deze gezinnen (gemiddelde veranderscore = 4.5 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.30), in hun kennis over het syndroom van Usher (gemiddelde veranderscore = 4.3 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.37) en in hun inzicht in wat psycho-educatie bij gezinnen met een kind met het syndroom van Usher inhoudt (gemiddelde veranderscore = 4.2 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.70). De ontwikkelde materialen hadden volgens de professionals voor minder verandering gezorgd in het kunnen inschatten of een gezin moest worden doorverwezen naar een andere organisatie (gemiddelde veranderscore = 3.0 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.10), in hun vermogen om de omgeving van het gezin te betrekken bij het leren omgaan met het syndroom van Usher (gemiddelde veranderscore = 3.2 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.25) en in het kunnen afstemmen van de inhoud op de kenmerken van het gezin (gemiddelde veranderscore = 3.3 op een schaal van 1 op 5; SD = 0.25). Van de 6 professionals gaven 3 professionals aan dat de ontwikkelde materialen voor geen verandering hadden gezorgd in hoe zij een behandelrelatie opbouwden, hun empathisch vermogen en de manier waarop zij een positief toekomstperspectief stimuleerden bij de gezinnen.

Beoordeling handreiking: Alle professionals gaven aan dat ze de handreiking hadden gebruikt tijdens de psycho-educatie. Van de verschillende onderdelen van de handreiking maakten zij het meest gebruik van de bouwstenen, thema's, de uitgangspunten van psycho-educatie, en de tips voor bejegening'. De handreiking kreeg van de professionals een gemiddeld cijfer van 8.2 uit 10 (min 6.0 en max 10.0).

Beoordeling trainingsprogramma: Professionals gaven aan dat zij van alle onderdelen van het trainingsprogramma het minst gebruik hadden gemaakt van de samenwerking met de ervaringsdeskundigen. Verder hadden alle professionals gebruik gemaakt van de workshop en de intervisiebijeenkomsten. Zij beoordeelden de intervisiebijeenkomsten als het meest leerzaam. De intervisiebijeenkomsten werden door de professionals beoordeeld met een gemiddeld cijfer van 8.2 uit 10 (min 7.0 en max 9.0).

Beoordeling overige materialen en bronnen: Professionals gaven aan dat zij naast de ontwikkelde materialen ook gebruik hadden gemaakt van additionele bronnen en materialen die geen onderdeel waren van de ontwikkelde materialen van het project 'Coping met Usher', waaronder boeken over het syndroom van Usher, video's op Youtube over het syndroom van Usher en sparren met een professional die veel ervaring heeft met het inzetten van psycho-educatie bij gezinnen met en kind met het syndroom van Usher (lid van het projectteam). Van alle materialen en bronnen (wel en niet onderdeel van de ontwikkelde materialen binnen het project 'Coping met Usher') maakten de professionals het meest gebruik van het sparren met de ervaren professional (geen onderdeel van de ontwikkelde materialen). Zij gaven deze bron de hoogste effectiviteitscore van alle bronnen en materialen die zij hadden gebruikt (gemiddelde effectiviteitscore = 4.7 op een schaal van 1 op 5 ; SD = 0.27)

Adoptie en intentie tot gebruik van de ontwikkelde materialen: Professionals gaven aan over het algemeen weinig barrières te hebben ervaren bij het gebruik van handreiking en het trainingsprogramma in de dagelijkse praktijk. Professionals gaven aan dat zij over de juiste vaardigheden beschikten om de ontwikkelde materialen te kunnen gebruiken, met name als het gaat om de handreiking. Van de 6 professionals gaven 4 professionals aan dat het niet goed kunnen beheersen van de Nederlands taal of Nederlandse gebarentaal bij de gezinnen die de psycho-educatie ontvangen een barrière is voor het goed kunnen inzetten van de ontwikkelde materialen. De helft van de professionals gaf aan dat zij te weinig training hadden ontvangen om de ontwikkelde materialen goed te kunnen inzetten in de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Ook gaven alle professionals aan dat een gebrek aan ervaring met het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher ook een barrière is voor het goed kunnen inzetten van de ontwikkelde materialen. Van de 6 professionals gaven 2 professionals aan dat externe factoren zoals een pandemie (bijv. Covid-19) en de reisafstand naar het gezin een barrière kunnen zijn voor het goed kunnen inzetten van de ontwikkelde materialen. Alle professionals gaven aan dat ze de ontwikkelde materialen willen blijven gebruiken in de praktijk, met name de handreiking en de intervisie.

Evaluatie professionals (interview)

In de interviews gaven de professionals aan zich ondersteund te voelen door de handreiking en door de verschillende onderdelen van het trainingsprogramma. De professionals ervoeren een positieve verbetering in hun kennis over het syndroom van Usher, in hun inzicht in de gevolgen van het syndroom van Usher op het dagelijks leven van gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en in hun ervaren zelfeffectiviteit bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De professionals gaven ook aan dat zij naast de ontwikkelde materialen ook aanvullende ondersteuning hadden verkregen van een ervaren professional (geen onderdeel van de ontwikkelde materialen) uit het projectteam en van informatie op het internet over het syndroom van Usher.

Trainingsprogramma

Alle professionals gaven tijdens het interview aan dat zij de workshop als helpend hebben ervaren. Meerdere professionals gaven aan dat zij het zeer waardevol vinden dat door middel van de intervisiebijeenkomsten ervaringen met andere professionals en ook met de ervaringsdeskundigen gedeeld en besproken kunnen worden. Van de 6 professionals gaf 1 professional aan dat zij door de intervisiebijeenkomst meer zelfeffectiviteit ervoerde. Eén andere professional gaf aan dat zij tijdens de intervisiebijeenkomst met name geleerd had van de ervaringsdeskundigen.

Professional - "Wat zij mij vertellen dat kan je bijna niet overdragen. Als ik het jou zou vertellen dan is het al heel anders."

Handreiking

Meerdere professionals gaven tijdens het interview aan dat de handreiking hen houvast bood in het vormgeven van de psycho-educatie. Eén van de professionals gaf aan dat zij zich bekwaamer voelde doordat in de handreiking informatie stond over wat mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher belangrijk vinden in de ondersteuning. Echter, meerdere professionals gaven ook aan dat zij onderdelen van de handreiking nog te abstract vonden en nog worstelden met hoe zij het konden inzetten in de praktijk:

Professional - "Ik had de neiging om me er te veel door te laten inperken, omdat ik dacht zo moet het en dus ga ik het zo doen."

De professionals gaven tijdens het interview ook aan dat zij naast het gebruik van de handreiking met name denken te leren door ervaring op te doen met het bieden van psych-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Zij geven aan dat zij denken dat dit met name hun zelfeffectiviteit vergroot. Echter, enkele professionals zeiden ook dat het opdoen van ervaring

met het bieden van psycho-educatie bij gezinnen met een kind met het syndroom van Usher beperkt zal zijn, vanwege de lage prevalentie van de doelgroep.

Professional - "Hoe hou je het levend bij de professionals die ermee aan de slag moeten?"

Overige bronnen en materialen

De meeste professionals gaven in het interview aan dat zij vaak extra ondersteuning zochten bij een professional (geen onderdeel van de ontwikkelde materialen) die veel ervaring heeft met het bieden van psycho-educatie bij gezinnen met een kind met het syndroom van Usher (lid van het projectteam). Zij gaven aan deze professional regelmatig te bellen om te sparren over de psycho-educatie. Volgens de professionals heeft deze professional een belangrijke rol gehad in het kunnen bieden van de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De professionals gaven aan dat deze professional naast kennis en informatie ook emotionele en praktische ondersteuning gaf. Bijvoorbeeld door het geven van tips, delen van eigen ervaringen en het geven van aanmoediging.

Professional - "Ik heb ook echt letterlijke zinnen die zij zegt overgenomen om richting ouders te gebruiken. Zij heeft zoveel ervaring."

Conclusie

De resultaten van de pilotstudie wijzen uit dat de gezinnen die de psycho-educatie hebben ontvangen over het algemeen tevreden waren over de ondersteuning en de professionals die de psycho-educatie boden. De professionals zijn tevreden met de ontwikkelde materialen, met name met de intervisiebijeenkomsten en de bouwstenen in de handreiking. Ze hebben het minst gebruikt gemaakt van de samenwerking met de ervaringsdeskundigen. Sommige professionals zouden nog meer training willen ontvangen en vinden onderdelen van de handreiking nog te abstract. De professionals geven aan dat ze de ontwikkelde materialen willen blijven gebruiken in de praktijk en ze de geboden psycho-educatie zouden aanraden aan andere gezinnen. De resultaten van de pilotstudie laten ook zien dat professionals naast de ontwikkelde materialen ook gebruik maken van andere bronnen of materialen. Met name het sparren met een professional die veel ervaring heeft met het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met het syndroom van Usher wordt als zeer waardevol ervaren.



21 Conclusie en discussie

Het doel van het project 'Coping met Usher' was eenduidigheid creëren in de manier waarop psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher wordt geboden door het ontwikkelen van materialen voor professionals die deze psycho-educatie bieden, te onderzoeken of de ontwikkelde materialen aansluiten bij de behoeften van deze professionals en de ontwikkelde materialen beschikbaar te stellen voor de praktijk. De psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher omvat een uitwisseling van kennis, informatie, inzicht en handelingsadviezen over het syndroom van Usher aan het kind met het syndroom van Usher en de ouders van het kind met het syndroom van Usher en eventueel andere naasten/betrokkenen. Gezien de progressiviteit van het syndroom heeft de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher een cyclisch karakter. De psycho-educatie heeft tot doel het gezin met een kind met het syndroom van Usher te ondersteunen in het leren omgaan met het syndroom van Usher.

Om bovenstaande te bewerkstelligen werd het project ingedeeld in drie fasen. In deze fasen zijn meerdere onderzoeken uitgevoerd om antwoord te vinden op de onderzoeksvraag van het project, namelijk hoe kan psycho-educatie gezinnen met een kind met het syndroom van Usher doeltreffend ondersteunen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher? Om deze onderzoeksvraag te beantwoorden zijn meerdere deelvragen opgesteld per fase van het project:

1. In de **oriëntatiefase** werden de ondersteuningsbehoeften van mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher in kaart gebracht zodat de ontwikkelde materialen zo veel mogelijk aansluiten bij de ondersteuningsbehoeften van gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. In deze fase werden de volgende deelvragen beantwoord: Welke informatie en ondersteuning hebben gezinnen met een kind met het syndroom van Usher nodig om te leren omgaan met het syndroom van Usher volgens mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher? Welke vormen van informatie en ondersteuning dragen volgens mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher bij aan het leren omgaan met het syndroom van Usher? Wat wordt er volgens professionals tot op heden in de praktijk geboden aan psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher?,
2. In de **productiefase** werd een plan gemaakt voor het ontwikkelen van de materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en dit plan werd uitgevoerd.

- In deze fase werd de volgende deelvraag beantwoord: Welke materialen moeten er voor professionals worden ontwikkeld om psycho-educatie aan gezinnen met het een kind met het syndroom van Usher te kunnen bieden?,
3. In de **uitvoeringsfase** werden de ontwikkelde materialen in gebruik genomen en geëvalueerd. In deze fase werden de volgende deelvragen beantwoord: In welke mate zijn de professionals en de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher tevreden over de psycho-educatie die geboden wordt door middel van de ontwikkelde materialen die zijn ontwikkeld binnen het project 'Coping met Usher'? In welke mate leveren de ontwikkelde materialen, die zijn ontwikkeld binnen het project 'Coping met Usher', een bijdrage aan het bereiken van beoogde doelen binnen de psycho-educatie volgens de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en de professionals?

Samenvatting resultaten project 'Coping met Usher'

Oriëntatiefase

Uit de verschillende onderzoeken uitgevoerd in de oriëntatiefase van het project 'Coping met Usher' bleek dat gezinnen met een kind met het syndroom van Usher ondersteuningsbehoeften hebben. Zowel uit de literatuurstudie, de interviewstudie, de focusgroepstudie en de enquêtestudie bleek dat gezinnen een behoefte hebben aan ondersteuning in de vorm van: kennis en informatie over het syndroom van Usher, handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher, waaronder het creëren van een positief toekomstperspectief, en emotionele en sociale ondersteuning gericht op het leren omgaan met het syndroom van Usher. Deze ondersteuningsbehoeften hebben deze gezinnen direct na het stellen van de diagnose, maar kunnen ook op een later moment in het leven van het kind ontstaan of terugkeren. Verder werd in al deze studies het belang van lotgenotencontact in de ondersteuning aan gezinnen met het een kind met het syndroom van Usher benadrukt. Ook bleek dat de gezinnen met name positief zijn over het krijgen van informele ondersteuning (ondersteuning die wordt gegeven door mensen die dat niet vanuit hun beroep doen, bijvoorbeeld lotgenotencontact) en minder over formele ondersteuning (ondersteuning die wordt gegeven door mensen die daarvoor zijn opgeleid, bijvoorbeeld artsen en zorg- of onderwijsprofessionals). Dat kan mogelijk verklaard worden doordat de manier waarop formele ondersteuning wordt geboden cruciaal is voor de ervaring van gezinnen met de ondersteuning. Dit bleek ook uit de huidige studies. Zo is het voor deze gezinnen belangrijk dat de professionals empathisch zijn (tijd en ruimte hebben in de behandeling voor het delen en leren reguleren van emoties), met de ouders op een gelijkwaardige manier samenwerken en kennis hebben van het syndroom van Usher en ervaring hebben met het begeleiden van gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.

Uit deze studies bleek ook dat het belangrijk is voor de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher dat de ondersteuning op maat kan worden aangeboden en dat in dit proces de omgeving (naasten) kan worden betrokken.

Uit het onderzoek bleek ook dat het merendeel van de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher geen ondersteuning (formele en informele ondersteuning) hadden ontvangen bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. De gezinnen die ondersteuning hadden ontvangen hebben voornamelijk kennis en informatie over het syndroom van Usher ontvangen. Verder bleek ook dat er geen bestaande psycho-educatieve interventies of methoden beschikbaar waren voor de ondersteuning aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Er waren wel bestaande psycho-educatieve bronnen gevonden gericht op andere doelgroepen (bijv. met één zintuiglijke beperking) die gebruikt konden worden als basis voor het ontwikkelen van de materialen voor de psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Verder heeft de oriëntatiefase ook een definitie van psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher opgeleverd en zijn er thema's geïnventariseerd die volgens experts belangrijk zijn in de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Deze thema's kwamen overeen met de thema's genoemd door mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher in de interviewstudie, focusgroepstudie en enquêtestudie. De resultaten van de oriëntatiefase zijn meegenomen in de ontwikkeling van de materialen voor professionals die de psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.

Productiefase

In de productiefase is een plan gemaakt voor het ontwikkelen van de materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher en zijn deze materialen ontwikkeld. Dit resulteerde in een handreiking 'Coping met Usher' en een trainingsprogramma 'Coping met Usher'. In de handreiking zijn de basisprincipes van de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher beschreven. Daarnaast bevat de handreiking ook vier bouwstenen waarin concrete handvatten voor de professionals staan voor hoe zij de psycho-educatie kunnen aanbieden. Verder bevat de handreiking ook een uitwerking van verschillende thema's opgehaald in de oriëntatiefase die besproken kunnen worden tijdens de psycho-educatie met het gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Het trainingsprogramma bestaat uit een workshop 'handreiking gebruiken', intervisiebijeenkomsten voor professionals en samenwerking met ervaringsdeskundigen. Alle onderdelen van het trainingsprogramma zijn verplicht voor professionals wanneer zij psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher.

Uitvoeringsfase

De ontwikkelde materialen voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher zijn in de uitvoeringsfase in gebruik genomen en geëvalueerd. Dit is gedaan door middel van een pilotstudie. Aan de pilotstudie deden 5 gezinnen met 6 kinderen met het syndroom van Usher mee. In totaal hebben 6 professionals de ontwikkelde materialen in gebruik genomen en psycho-educatie geboden aan deze gezinnen middels de ontwikkelde materialen. Na afloop vulden de gezinnen een korte evaluatievragenlijst in en de professionals vulden ook een evaluatievragenlijst in en werden verder bevraagd naar hun ervaringen door middel van een één-op-één interview. De resultaten van deze pilotstudie wezen uit dat de gezinnen die de psycho-educatie hebben ontvangen over het algemeen tevreden zijn over de ondersteuning en de professionals die de psych-educatie boden. Ook blijkt dat de professionals grotendeels tevreden zijn met de ontwikkelde materialen. Zij gaven aan voornamelijk tevreden te zijn met de intervisiebijeenkomsten waarin de professionals ervaringen konden uitwisselen met de andere professionals en ervaringsdeskundigen. Daarnaast bleek dat de professionals tevreden zijn met de bouwstenen in de handreiking. Professionals gaven aan het minst gebruik te hebben gemaakt van de samenwerking met de ervaringsdeskundigen, één onderdeel van het trainingsprogramma. Ook bleek uit de evaluatie dat de professionals meer training zouden willen ontvangen en dat ze sommige onderdelen van de handreiking niet voldoende concreet vinden. De professionals gaven aan dat ze de ontwikkelde materialen willen blijven gebruiken in de praktijk. De resultaten van de pilotstudie laten daarnaast zien dat professionals naast de ontwikkelde materialen ook gebruik maken van andere bronnen of materialen. Met name het sparren met een ervaren professional werd als cruciaal gezien voor het kunnen uitvoeren van de psycho-educatie. Deze samenwerking was geen onderdeel van de ontwikkelde materialen.

Implicaties

Voor de praktijk

Uit de resultaten van de onderzoeken binnen dit project blijkt dat gezinnen met een kind met het syndroom van Usher ondersteuningsbehoeften hebben. Tegelijkertijd blijkt ook dat weinig gezinnen ondersteuning hebben ontvangen, met name als het gaat om ondersteuning in de vorm van handvatten bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Ook blijkt dat er geen psycho-educatieve methodieken en interventies voor deze gezinnen bestaan. Dat maakt dat er een nood was voor het ontwikkelen van materialen voor de professionals die psycho-educatie bieden aan deze gezinnen met een kind met het syndroom van Usher, zodat er ook meer eenduidigheid ontstaat in hoe deze ondersteuning aan deze gezinnen wordt geboden. Uit de pilotstudie blijkt dat de gezinnen die de psycho-educatie hebben ontvangen waarbij de

professional gebruik heeft gemaakt van de ontwikkelde materialen hierover tevreden zijn. Ook zijn zij tevreden over de professionals die deze ondersteuning hebben geboden. Dat laatste is een belangrijke bevinding, omdat uit de onderzoeken in de oriëntatiefase bleek dat met name de manier waarop ondersteuning wordt geboden aan de gezinnen cruciaal is voor de ervaringen van deze gezinnen. Op basis van deze resultaten raden we aan om de ontwikkelde materialen te blijven gebruiken in de praktijk en deze te implementeren binnen de organisaties die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Hierbij gaat het om zowel het gebruiken van de handreiking 'Coping met Usher' als ook om het kunnen volgen van alle onderdelen van het trainingsprogramma 'Coping met Usher'. Wij raden aan om (nieuwe) professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher de mogelijkheid te geven om de handreiking te gebruiken, de workshop te volgen, intervisie-bijeenkomsten bij te wonen en samen te werken met ervaringsdeskundigen. Ook raden we andere organisaties in de ZG-zorg die psycho-educatie willen gaan bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher aan de ontwikkelde materialen te gebruiken, zodat ook deze professionals handvatten hebben bij het ondersteunen van deze gezinnen en er eenduidigheid ontstaat in de manier waarop psycho-educatie wordt geboden aan deze gezinnen tussen organisaties.

Uit het onderzoek blijkt ook dat de professionals nog aanvullende ondersteuningsbehoeften hebben. Zo geven zij aan aanvullende training te willen ontvangen, onderdelen van de handreiking niet concreet genoeg te vinden én vaak gebruik te maken van bronnen die geen onderdeel vormen van de ontwikkelde materialen (o.a. het sparren met een ervaren professional). De laatste twee bevindingen laten zien dat professionals met name nog op zoek zijn naar concrete handvatten bij het bieden van psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. Op basis van deze bevinding raden wij aan om de ontwikkelde materialen verder door te ontwikkelen naar een behandelgids met concretere stappen hoe psycho-educatie aan te bieden en een trainingsprogramma waarin niet alleen kennis wordt gedeeld over hoe de handreiking te gebruiken, maar ook kennis wordt gedeeld hoe de psycho-educatie voor gezinnen met een kind met het syndroom van Usher uit te voeren.

Voor vervolgonderzoek

Uit de resultaten van de onderzoeken binnen dit project blijkt dat gezinnen met een kind met het syndroom van Usher tevreden zijn met de ondersteuning die zij hebben ontvangen en professionals grotendeels tevreden zijn met de ontwikkelde materialen. Echter op basis van deze onderzoeken is nog onduidelijk wat het uiteindelijke effect is van de psycho-educatie op de gezinnen met het kind met het syndroom van Usher. Vragen als 'Draagt de ondersteuning die gezinnen ontvangen van professionals bij aan het welbevinden van deze

gezinnen? En worden de doelen die gezinnen samen met de professional hadden gesteld behaald?' zijn nog niet beantwoord. Vervolgonderzoek naar de effectiviteit van de psycho-educatie op het welbevinden van de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher is nodig, zodat er naast de ervaringen van gezinnen ook inzicht is in het uiteindelijke effect van de psycho-educatie.

Verder zal op basis van de hierboven voorgestelde doorontwikkeling van de ontwikkelde materialen opnieuw moeten worden onderzocht of de professionals die deze behandeling bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher aan de hand van de ontwikkelde materialen ook tevreden zijn met de doorontwikkelde materialen. Of zij zich voldoende competent voelen in het kunnen bieden van psycho-educatie aan deze gezinnen aan de hand van de doorontwikkelde materialen en doordoor mogelijk minder gebruik hoeven te maken van aanvullende bronnen (o.a. het sparren met een ervaren professional).

Uit de resultaten van de onderzoeken uit de oriëntatiefase blijkt dat de manier waarop ondersteuning wordt geboden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher cruciaal is voor de uiteindelijke ervaringen van deze gezinnen. Daarom raden we aan om in vervolgonderzoek ook de kwaliteit van de behandelrelatie tussen de professionals en de ouders en/of het kind te onderzoeken. Kunnen professionals een goede behandelrelatie opbouwen met de gezinnen met een kind met het syndroom van Usher die de psycho-educatie ontvangen? Wat draagt bij aan een goede behandelrelatie?

Verder raden we aan om in vervolgonderzoek te onderzoeken op welke manier informele ondersteuning (ondersteuning van naasten en lotgenoten) het beste een plaats kan krijgen in de formele ondersteuning die gegeven wordt door professionals. Uit de resultaten van de onderzoeken uit de oriëntatiefase blijkt dat gezinnen met een kind met het syndroom van Usher behoefte hebben aan informele ondersteuning, waaronder lotgenotencontact. Echter uit de resultaten van de uitvoeringsfase (pilotstudie) blijkt dat professionals weinig gebruik hebben gemaakt van de samenwerking met ervaringsdeskundigen. Er is meer kennis nodig over hoe contact met lotgenoten het beste vorm kan worden gegeven binnen psycho-educatie.

Tenslotte raden we aan om bij de opzet en uitvoering van vervolgonderzoek wederom zowel ervaringsdeskundigen (mensen met het syndroom van Usher en ouders van een kind met het syndroom van Usher) als professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te betrekken. We raden aan om in dit samenwerkingsproces tussen onderzoekers, ervaringsdeskundigen en professionals de participatiematrix (Smits et al., 2018) te gebruiken. Deze matrix kan ondersteunen bij het bespreken van de diverse rollen die men kan innemen in het project en de verwachtingen die iedereen heeft van de samenwerking.

Conclusie

Gezinnen met een kind met het syndroom van Usher hebben meerdere ondersteuningsbehoeften. Veel van hen krijgen weinig tot geen ondersteuning bij het leren omgaan met het syndroom van Usher. Er blijken ook geen psycho-educatieve methoden of interventies beschikbaar te zijn voor het ondersteunen van deze gezinnen. In het project 'Coping met Usher' zijn er materialen ontwikkeld voor professionals die psycho-educatie bieden aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher. De gezinnen die psycho-educatie hebben ontvangen zijn tevreden over de ondersteuning die zij hebben ontvangen van de professionals die de ontwikkelde materialen in gebruik hebben genomen. Ook de professionals zijn grotendeels tevreden met de ontwikkelde materialen. Op basis van de resultaten van de onderzoeken wordt aangeraden om de ontwikkelde materialen in de praktijk te blijven gebruiken en daarnaast verder door te ontwikkelen en in vervolgonderzoek de effectiviteit van de psycho-educatie aan gezinnen met een kind met het syndroom van Usher te onderzoeken.

22 Bronnenlijst

- ATLAS.ti Scientific Software Development GmbH. (2019). ATLAS.ti Mac (version 8.1.3) [Qualitative data analysis software]. <https://atlasti.com>
- Altshuler, K. Z. (1978). The personal, social, and emotional implications of deaf-blindness. *American Annals of the Deaf*, 123, 372–376.
- Bartholomew Eldredge, L. K., Markham, C. M., Ruiters, R. A. C., Fernández, M. E., Kok, G., & Parcel, G. S. (2016). *Planning health promotion programs: An Intervention Mapping approach* (4de dr.). Jossey-Bass Inc.
- Côté, L., Dubé, M., St-Onge, M., & Beaugregard, L. (2013). Helping persons with Usher syndrome type II adapt to deafblindness: An intervention program centered on managing personal goals. *British Journal of Visual Impairment*, 31, 139–149.
- Damen, S., Schuengel, C., Ruijsenaars, W., & Janssen, M. J. (2021). Comparison of social validity ratings with the effects of a video-feedback intervention for communication partners of individuals with deafblindness. *Frontiers in Education*, 6, 1-11.
- Damen, S., van Zadelhoff, I., & Tijsseling, C. (2023). Experiences of families involving a parent with progressive deafblindness. *British Journal of Visual Impairment*, 41(2), 212–230.
- Dammeyer, J. (2012). Children with Usher syndrome: Mental and behavioral disorders. *Behavioral and Brain Functions*, 8, 1-5.
- De Haan, E. (2001). *Leren met collega's: Praktijkboek intercollegiale consultatie*. Van Gorcum.
- De Meyer, R. E., Janssen, J., & Veerman, J. W. (z.d.). *Handleiding Beoordelingsschaal Tevredenheid en Effect (BESTE)*. Nijmegen: Praktikon.
- Dierckx de Casterlé, B., Gastmans, C., Bryon, E., & Denier, Y. (2012). QUAGOL: A guide for qualitative data analysis. *International Journal of Nursing Studies*, 49, 360–371.
- Donners, I. (2022). *De bijdrage van Formele en Informele Ondersteuning aan Zelfeffectiviteit en Kennisontwikkeling van Professionals die Psycho-educatie bieden aan Gezinnen met het Syndroom van Usher* [Master-these]. Amsterdam, The Netherlands: Vrije Universiteit Amsterdam. <https://www.kentalis.nl/wetenschappelijk-onderzoek/coping-met-usher>.
- Dwarswaard, J., & van de Bovenkamp, H. (2015). Self-management support: A qualitative study of ethical dilemmas experienced by nurses. *Patient Education and Counseling*, 98, 1131–1136.
- Ehn, M., Anderzén-Carlsson, A., Möller, C., & Wahlqvist, M. (2019). Life strategies of people with deafblindness due to Usher syndrome type 2a - A qualitative study. *International Journal of Qualitative Studies on Health and Well-Being*, 14, 1-15.

- Ehn, M., Möller, K., Danermark, B., & Möller, C. (2016). The relationship between work and health in persons with Usher syndrome type 2. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, *110*, 233–244.
- Evans, M., & Baillie, L. (2022). Usher syndrome, an unseen/hidden disability: a phenomenological study of adults across the lifespan living in England. *Disability & Society*, *37*, 1636-1658.
- Flick, U. (2018). *An introduction to qualitative research* (6th edition). SAGE Publications.
- Gullacksen, A.-C., Göransson, L., Rönnblom, G. H., Koppen, A., & Jørgensen, A. R. (2011). *Life adjustment and Combined Visual and Hearing Disability/Deafblindness: An Internal Process over Time*. Stockholm: Nordic Centre for Welfare and Social Issues.
- Hammer, E. (1978). Needs of adolescents who have Usher's syndrome. *American Annals of the Deaf*, *123*, 389–394.
- Högner, N. (2015). Psychological stress in people with dual sensory impairment through Usher syndrome type II. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, *109*, 185–197.
- Isarin, J. (2019). *Psycho-educatie TOS voor het SO: Handleiding*. Koninklijke Kentalis.
- Jurrius, K., Havinga, L., & Strating, G. (2007). *De C-toets versie 2007: Evaluatie C-toets versie 2004, aanpassing en verantwoording*. Stichting Alexander.
- Kiger, M. E., & Varpio, L. (2020). Thematic analysis of qualitative data: AMEE Guide No. 131. *Medical Teacher*, *42*, 846–854.
- Landis, J. R., & Koch, G. G. (1977). The measurement of observer agreement for categorical data. *Biometrics*, *33*, 159-174.
- Miner, I. D. (1995). Psychosocial implications of Usher syndrome, type I, throughout the life cycle. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, *89*, 287–296.
- Miner, I. D. (1997). People with Usher Syndrome, Type II: Issues and adaptations. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, *91*, 579–589.
- Möller, K. (2008). *Impact on participation and service for persons with deafblindness*. [Dissertation]. Örebro, Sweden: Örebro University.
- Morgan, D. L. (1997). *Focus groups as qualitative research / David L. Morgan* (2nd ed). Sage Publications.
- O'Connor, C., & Joffe, H. (2020). Intercoder reliability in qualitative research: Debates and practical guidelines. *International Journal of Qualitative Methods*, *19*, 1-13.
- Ramos, C., Stams, G. J., Stoel, R., Faas, M., van Yperen, T. A., & Dekovic, M. (2006). Het meten van cliënttevredenheid in de jeugdzorg. *Kind en adolescent*, *27*, 99–105.
- Segaar, D., Bolman, C., Willemsen, M. C., & Vries, H. de. (2006). Determinants of adoption of cognitive behavioral interventions in a hospital setting: Example of a minimal-contact smoking cessation intervention for cardiology wards. *Patient Education and Counseling*, *61*, 262–271.

- Seys, D. M. (1987). *Kwaliteit van zorg: zorg voor kwaliteit. Analyse en beïnvloeding van frequentie en kwaliteit van bewoner gerichte zorguitvoering door groepsleid(st)ers in de residentiële zwakzinnigzorg* [Quality of care: care for quality. analysis and modification of frequency and quality of client-guided care by residential staff]. [Dissertation]. Nijmegen, Netherlands: Radboud University
- Torrie, C. (1978). Families of adolescent children with Usher's syndrome: Developing services to meet their needs. *American Annals of the Deaf*, 123, 381-388.
- Van Zadelhoff, I., & Damen, S. (2018). *Blind Vertrouwen De impact van Usher op het gezinsleven*. Kentalis & GGMD.
- Van de Molengraft, S. (2011). *Acquired deafblindness and its influences on identity construction*. [Master-thesis]. Groningen, The Netherlands, University of Groningen.
- Vermeulen, P. (2001). *Ik ben speciaal*. Gent: Vlaamse Dienst Autisme.
- Wahlqvist, M., Möller, C., Möller, K., & Danermark, B. (2013). Physical and psychological health in persons with deafblindness that is due to Usher syndrome Type II. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, 107, 207-220.
- Wahlqvist, M., Möller, C., Möller, K., & Danermark, B. (2016). Implications of deafblindness: The physical and mental health and social trust of persons with Usher Syndrome Type 3. *Journal of Visual Impairment & Blindness*, 110, 245-256.
- Wensing, M., & Grol, R. P. T. M. (2017). *Implementatie: Effectieve verbetering van de patiëntenzorg*.
- World Health Organization. (2013). *How to use the ICF: A practical manual for using the International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF)*. WHO.
- Zijlstra, D. N. (2022). *The development and evaluation of a smoking cessation referral aid for the primary care setting*. [Dissertation]. Maastricht, The Netherlands: Maastricht University.

www.deelkracht.nl

