

# SAMENVATTING

## PATIËNTENPARTICIPATIE IN REUMA- ONDERZOEK - EEN RESPONSIEVE EVALUATIE OP VIER NIVEAUS

Deze samenvatting heb ik geschreven voor familie, vrienden en patiëntvertegenwoordigers die graag willen weten wat ik de afgelopen jaren heb onderzocht.



In dit proefschrift bestudeer ik een nieuwe rol van mensen met een chronische ziekte in wetenschappelijk onderzoek. Die nieuwe rol verschilt van de traditionele patiëntenrol als passief object van onderzoek. In het eerste hoofdstuk wordt beschreven hoe patiënten die nieuwe rol op verschillende manieren kunnen invullen. Daarvan heb ik er vier onderzocht: De patiënt als onderzoekspartner, als deelnemer aan een wetenschappelijk congres, als lid van een wetenschappelijke commissie en als patiënt-onderzoeker.

Wat deze rollen gemeen hebben, is de gelijkwaardigheid waarmee patiënten en onderzoekers samenwerken in onderzoekspraktijken. Daarbij is het streven om in een machtsvrije dialoog ruimte te creëren voor het alledaagse perspectief van patiënten. Het ruimte maken voor ervaringskennis van patiënten is belangrijk omdat het patiëntenperspectief vaak verloren gaat in wetenschappelijk onderzoek. Dit heeft te maken met de dominantie van het 'medisch denken' waarin genezing of behandeling van de ziekte centraal staat en niet de persoon met de ziekte. De focus op medische aspecten van de ziekte heeft tot gevolg dat andere aspecten worden buitengesloten. Vaak zijn dat existentiële, sociale en maatschappelijke vragen die oprijzen als iemand geconfronteerd wordt met een (chronische) ziekte. Die vragen reiken verder dan 'is genezing mogelijk' of 'bestaat er een behandeling'. Het zijn vragen die vanuit het perspectief van patiënten belangrijk zijn, maar vaak onbedoeld en ongewild, uit het gezichtsveld van onderzoekers verdwijnen. Ik heb dit 'langzame vragen' genoemd omdat de oplossing vaak niet voor de hand ligt en wetenschappelijk onderzoek veel tijd vergt.

Patiëntenparticipatie biedt een mogelijkheid om de verstoorde balans tussen de focus van het onderzoekssysteem en de ervaringen van patiënten te herstellen. Wanneer patiënten als gelijkwaardige partners betrokken worden bij het formuleren van onderzoeksvragen en meedenken over de uitvoering van onderzoek, kunnen belangrijke thema's van patiënten en patiëntenorganisaties aan bod komen. Met name in moderne, democratische samenlevingen, wordt veel geëxperimenteerd met patiëntenparticipatie. Deze participatie wordt gezien als een democratisch en fundamenteel recht van patiënten. Aan de hand van vier gevalsbeschrijvingen heb ik geprobeerd om antwoord te vinden op de volgende onderzoeksvraag: Wat is de meerwaarde van patiëntenparticipatie en wat is daarvoor nodig?

De gevalsbeschrijvingen spelen zich af op vier niveaus binnen het reuma-onderzoek: Lokaal, Nationaal, Europees en Internationaal. Door met de direct betrokkenen in gesprek te gaan (responsieve evaluatie) hoop ik antwoord te kunnen geven op de onderzoeksvraag. Hieronder vat ik de bevindingen uit dit proefschrift samen.

### **Netwerk van onderzoekspartners in Nederland (Reumapatiëntenbond)**

De Reumapatiëntenbond nam in 2007 het initiatief om een netwerk van onderzoekspartners op te zetten. Onderzoekspartners zijn patiënten met belangstelling voor wetenschappelijk

onderzoek en de bereidheid om als vrijwilliger het patiëntenperspectief hierin naar voren te brengen. Daartoe werken ze op basis van gelijkwaardigheid samen met onderzoekers. Binnen drie jaar werden 27 patiënten geworven die een tweedaagse training volgden en daarna meeliepen met een onderzoek bij één van de deelnemende academische centra voor reumatologie. In het tweede jaar van dit project startte ik, samen met Janneke Elberse, een onderzoek naar de succes- en faalfactoren van dit netwerk.

Ons evaluatieonderzoek duurde anderhalf jaar en bestond uit het actief volgen en adviseren van de 27 onderzoekspartners en 16 onderzoekers. Hiervoor gebruikten wij het FIRST-model. Dit model is ontwikkeld in Bristol (Engeland) en biedt een praktische leidraad voor onderzoekers om samen te werken met onderzoekspartners. De letters staan voor **F**aciliteren, **I**dentificeren, **R**espect, **S**upport en **T**rainen. Gegevens werden verzameld via interviews, focusgroepen, (instructie)-bijeenkomsten, email en telefoon. De resultaten van dit onderzoek staan vermeld in hoofdstuk 2 en 3.

Het onderzoek van het Nederlandse netwerk heeft aangetoond dat het FIRST-model een bruikbare leidraad is voor het opbouwen van een netwerk van onderzoekspartners. In dit model hebben we het onderscheid tussen ‘faciliteren’ en ‘ondersteunen’ aangescherpt. Faciliteren is gericht op het creëren van randvoorwaarden voor patiëntenparticipatie door het wegnemen van belemmeringen in het systeem en het motiveren en begeleiden van onderzoekers. Faciliteren is een verantwoordelijkheid van de onderzoeksleiding. Ondersteunen is gericht op het creëren van een veilige omgeving waarin onderzoekspartners een betekenisvolle bijdrage kunnen leveren aan onderzoek. Dat kan door onderzoekspartners goed voor te bereiden bij aanvang van een project en hen de kans te geven om hun verhaal te vertellen zonder dit direct te vertalen in wetenschappelijke termen. Met andere woorden: In gesprek gaan met onderzoekspartners in een machtsvrije dialoog en ruimte geven aan ervaringskennis. Ondersteunen is een verantwoordelijkheid van de direct betrokken onderzoeker.

Ons onderzoek bracht aan het licht dat het FIRST model niet alleen van toepassing is op de begeleiding van onderzoekspartners, maar ook op die van onderzoekers. Veel onderzoekers bleken niet in staat om op basis van gelijkwaardigheid met onderzoekspartners samen te werken. Zij gaven aan dat zij het moeilijk vonden om een duurzame relatie met onderzoekspartners op te bouwen. Soms kwam dat omdat het bestaande onderzoekssysteem teveel barrières opwierp. Maar soms ook omdat onderzoekers onvoldoende werden voorbereid of onvoldoende steun ondervonden van collega's en superieuren. Die zagen bijvoorbeeld ervaringskennis vaak niet als een geldige bron voor wetenschappelijk onderzoek.

### **Europese aanbevelingen voor patiëntenparticipatie (EULAR)**

Op initiatief van de Europese reumapatiëntenorganisaties heeft de koepelorganisatie European League Against Rheumatism (EULAR) aanbevelingen opgesteld voor het betrekken van onderzoekspartners in wetenschappelijk onderzoek. Ik heb dit proces begeleid vanuit mijn rol als patient-onderzoeker. Daartoe behoorde onder andere het creëren van de randvoorwaarden voor een open en gelijkwaardige dialoog tussen zeven ervaren onderzoekspartners en zeven onderzoekers. Deze dialoog heeft geleid tot een breed gedragen consensus over acht aanbevelingen voor patiëntenparticipatie. Deze staan vermeld in hoofdstuk 4.

Onderzoekspartners dienen altijd betrokken te worden bij klinisch onderzoek en bij het ontwikkelen van richtlijnen. In ander wetenschappelijk onderzoek worden onderzoekers sterk aangeraden om patiëntenparticipatie te overwegen. Als onderzoekers willen samenwerken met onderzoekspartners, kan dat het beste vanaf een zo vroeg mogelijk stadium, niet eenmalig, maar in principe gedurende alle fasen van een onderzoek. Het is ook wenselijk dat onderzoekspartners nooit alleen in een commissie zitten, maar minimaal met twee personen. Dit biedt vele voordelen. De werving van onderzoekspartners wordt vergemakkelijkt met een heldere omschrijving van de bijdrage die wordt verwacht. Dit maakt ook een goede afstemming van wederzijdse verwachtingen mogelijk. Bij de werving van onderzoekspartners zijn communicatieve vaardigheden, motivatie en een positieve grondhouding belangrijk. De onderzoeker moet vervolgens voldoende ondersteuning bieden aan de onderzoekspartners en rekening houden met fysieke beperkingen. Ook dient de onderzoeker zorg te dragen voor goede informatie en training waar nodig. Tot slot is het belangrijk dat de bijdragen van onderzoekspartners voldoende worden gewaardeerd.

### **Uitkomstmaten in de reumatologie (OMERACT)**

In 2002 werd ik door het Reumafonds uitgenodigd om als patiëntvertegenwoordiger deel te nemen aan een conferentie over uitkomstmaten in de reumatologie (**Outcome Measures in Rheumatology Clinical Trials**, in kort: OMERACT). Deze gebeurtenis maakte op mij een grote indruk en heeft de weg gebaad voor mijn huidige rol als patiënt-onderzoeker. Tijdens dit congres maakte ik deel uit van een groep van elf patiënten met reumatoïde artritis (RA). Onze groep werd gevraagd om veel gebruikte uitkomstmaten in RA-onderzoek te beoordelen. Deze set van uitkomstmaten was in 1992 ontwikkeld tijdens de eerste OMERACT conferentie om onderzoekers te motiveren om in klinische studies dezelfde uitkomsten te meten. Er bestond grote behoefte aan meer uniformiteit in het aantal uitkomstmaten, de gebruikte meetinstrumenten en het rapporteren over uitkomstmaten. Ten aanzien van dit laatste werd er een grote willekeur geconstateerd, met het risico dat onderzoekers alleen die uitkomstmaten presenteerden die positief bleken te zijn. De zogenaamde *RA core-set* bracht hierin

verandering. Vanwege het succes van de conferentie en de consensus over een *core-set*, besloten de initiatiefnemers van OMERACT om de conferentie te herhalen. Immers ook voor andere reumatische aandoeningen zijn *core-sets* belangrijk. De organisatoren besloten daarom om de conferentie iedere twee jaar te organiseren, steeds op een ander continent.

Na tien jaar ontstond bij een klein deel van de onderzoekers onvrede over de *RA core-set*. Toen zij discussieerden over de vraag hoe groot een klinische verbetering dient te zijn om deze 'relevant' te mogen noemen, werd gesuggereerd dat alleen patiënten die vraag betekenisvol konden beantwoorden. De organisatoren hadden al geruime tijd nagedacht over het uitnodigen van patiëntvertegenwoordigers, maar zagen veel praktische bezwaren. In 2000 bleek de tijd rijp om de knoop door te hakken en werd besloten om voor het congres in 2002 patiëntvertegenwoordigers uit te nodigen.

In hoofdstuk 5 t/m 8 heb ik verslag gedaan van een responsieve evaluatie van tien jaar patiëntenparticipatie in OMERACT. Responsieve evaluatie betekent dat een initiatief of gebeurtenis wordt geëvalueerd vanuit het perspectief van alle deelnemers (ook wel stakeholders genoemd) en in een gelijkwaardige dialoog. In dit geval bestond mijn onderzoek uit een analyse van documenten, interviews met deelnemers en het observeren van onderzoekspartners tijdens patiëntbijeenkomsten. Aan de interviews namen twaalf onderzoekers, twee vertegenwoordigers van de farmaceutische industrie en internationale toezichthouders, twee stafmedewerkers, acht ervaren en acht nieuwe onderzoekspartners deel. Van de laatste groep heb ik drie deelnemers drie keer geïnterviewd om inzicht te krijgen hoe nieuwe onderzoekspartners hun deelname aan het congres op verschillende momenten ervaren.

Vanuit mijn rol als patient-onderzoeker heb ik niet het standpunt van een onafhankelijke buitenstaander ingenomen. Ik heb niet met een helikopterblik naar de mensen en gebeurtenissen gekeken, maar ik heb me *in* die gebeurtenis begeven. Ik ben in gesprek gegaan met deelnemers op basis van gelijkwaardigheid en heb op die manier geprobeerd om de gezichtspunten van alle deelnemers in kaart te brengen. Het doel was om wederzijds begrip te bevorderen waardoor het vinden van consensus werd vergemakkelijkt. Als onderzoeker koos ik voor een meervoudige partijdigheid. Dat houdt in dat ik mij in gelijke mate openstel voor de standpunten van onderzoekers, onderzoekspartners en andere deelnemers. Hiermee wil ik voorkomen dat één perspectief de overhand krijgt als ik mij teveel met één bepaalde groep zou identificeren. Hoewel ik een bepaalde verwantschap ervaar met andere patiënten, is het mijn verantwoordelijkheid om ervoor te zorgen dat alle deelnemers in gelijke mate aan de dialoog kunnen deelnemen. Omdat in de praktijk blijkt dat onderzoekspartners daar vaak meer moeite mee hebben dan onderzoekers, help ik hen om hun stem te laten horen. Vanuit deze benadering heb ik zowel het proces als het resultaat van patiëntenparticipatie in OMERACT onderzocht.

Hoofdstuk 5 beschrijft het effect van patiëntenparticipatie op de onderzoeksagenda van OMERACT en hoe OMERACT zich ontwikkeld heeft tot een lichtend voorbeeld voor andere wetenschappelijke conferenties. De meest opvallende uitkomst is de grote aandacht die sinds 2002 is ontstaan voor het thema ‘vermoeidheid’. Dat was, naast ‘algemeen welbevinden’ en ‘slaapstoornissen’ een belangrijk probleem dat door de patiëntvertegenwoordigers in de *RA core-set* werd gemist. Bijna alle geïnterviewde personen bevestigden dat vermoeidheid niet deze aandacht zou hebben gekregen zonder de inbreng van patiënten op het congres van 2002. Vermoeidheid was eerder door onderzoekers naar voren gebracht als een belangrijk symptoom, maar werd door niemand opgepikt. Het was vooral toe te schrijven aan de volhardendheid van patiënten waardoor er een grote stroom van publicaties op gang kwam die inmiddels ook onderzoekers van andere reumatische aandoeningen heeft geïnspireerd.

Mijn studie binnen OMERACT heeft ook meer kennis opgeleverd over de succes- en faalfactoren van patiëntenparticipatie in de praktijk. In hoofdstuk 6 staan vijf succesfactoren beschreven. Een langdurige betrokkenheid van de leiding is onmisbaar. Als de leiding niet het belang van patiëntenparticipatie onderschrijft, komt een duurzame samenwerking van patiënten en onderzoekers niet van de grond. Daarnaast is het belangrijk dat de opzet van het congres wordt aangepast aan de behoeften en mogelijkheden van onderzoekspartners. Dit kan door bijvoorbeeld tijden van sessies en toegankelijkheid van locaties te verbeteren, maar ook door het scheppen van ruimte voor zeggenschap van onderzoekspartners in werkgroepen en bestuur. De inbreng van onderzoekspartners groeit als patiëntenparticipatie wordt ingebed in de visie, structuur en regels van een organisatie. Daarnaast is een goede selectieprocedure belangrijk. Binnen OMERACT zijn onderzoekers zelf verantwoordelijk voor het identificeren van patiënten. Dat blijkt in de praktijk goed te werken omdat zij precies weten wat er van de onderzoekspartners wordt verwacht en of de partners in staat zijn om aan een meerdaags congres deel te nemen. Niet alleen wat de Engelse taal betreft, maar ook fysiek, communicatief en mentaal. Bovendien zullen onderzoekers zich verantwoordelijk voelen voor een goede begeleiding en ondersteuning van hun onderzoekspartner.

Uit de interviews werd verder duidelijk dat de stijl van werkgroepleiders beslissend is of onderzoekspartners de kans krijgen om aan een discussie deel te nemen of dat hun rol wordt gedegradeerd tot zwijgzame toeschouwers. Een empathische gespreksleider die beschikt over communicatieve vaardigheden is noodzakelijk voor het creëren van een open dialoog. Daarin moeten alle deelnemers zich veilig voelen om mee te doen en hun ervaringskennis in te brengen. Tot slot bleek ook individuele ondersteuning van de onderzoekspartners belangrijk.

In hoofdstuk 6 heb ik ook drie belemmeringen beschreven zoals het zware congresprogramma, de geringe representativiteit van de patiëntengroep en weerstand tegen verandering bij onderzoekers. Deze weerstand bestaat bij een kleine groep onderzoekers die

vindt dat OMERACT vooral om strategische redenen kiest voor patiëntenparticipatie, bijvoorbeeld om politiek correct te zijn. Anderen menen dat patiëntenparticipatie veel tijd kost zonder noemenswaardige voordelen. En weer anderen vinden dat de potentiële meerwaarde van patiëntenparticipatie niet volledig wordt benut. Daardoor ontstaat alsnog een vorm van schijnparticipatie.

In hoofdstuk 7 staan de verwachtingen, ervaringen en bijdragen van patiënten centraal die in 2010 voor het eerst aan het OMERACT congres deelnamen. Hun verhalen hebben ons veel geleerd over het dubbele karakter van het leerproces dat veel onderzoekspartners doormaken. Ik heb dat beschreven als een socialisatie-proces waarin zij leren hoe zij ervaringskennis op een zinvolle manier kunnen inbrengen in wetenschappelijk onderzoek. Dat gaat dikwijls met veel moeite. De waarde van ervaringskennis wordt nog lang niet altijd erkend. Dat levert regelmatig spanning, frustraties en teleurstelling op. Onderzoekspartners voelen zich dan niet gewaardeerd voor hun bijdragen en worden onzeker. Het onderzoekssysteem dwingt hen om zich aan te passen, maar zij vrezen dat daardoor de waarde van hun ervaringskennis verloren gaat.

De gezamenlijke bevindingen van tien jaar patiëntenparticipatie in OMERACT zijn geïntegreerd in hoofdstuk 8. Daar worden ook een aantal voorstellen gedaan voor verbetering.

### **Reflectie op de rol van patiënt-onderzoeker**

Mijn ervaringen als patiënt-onderzoeker heb ik beschreven in hoofdstuk 9. Daarbij speelt de methodologie van responsief onderzoek een belangrijke rol. Ik heb voor deze methodologie gekozen omdat hierin de dialoog en het bevorderen van gezamenlijk leren voorop staan. Tijdens mijn onderzoek is duidelijk geworden dat responsief evalueren een geschikte methode is om patiëntenparticipatie in wetenschappelijk onderzoek te bestuderen. Bovendien heb ik geleerd dat de rol van een responsieve onderzoeker heel goed past bij de positie van patiënt-onderzoeker. In beide gevallen staat de verantwoordelijkheid voor het scheppen van optimale condities voor dialoog centraal en wordt gestreefd naar relationele empowerment: de situatie waarin zowel patiënten als onderzoekers leren van elkaar en sterker worden als gevolg van de onderlinge samenwerking (synergie). Om dit te bereiken is, zoals ik eerder heb aangegeven, een meervoudige partijdigheid nodig: het vermogen om je in te leven in zowel de denk- en leefwereld van onderzoekers als die van patiënten. Die open houding, en de kennis die daaruit voortvloeit, maken het mogelijk om een brugfunctie te vervullen tussen beide werelden.

In dit hoofdstuk worden enkele voorbeelden geschetst waarin het niet altijd gemakkelijk bleek om aan de voorwaarde van een meervoudige partijdigheid te voldoen. Er bestaat altijd het risico van over-identificatie, bijvoorbeeld wanneer de patiënt-onderzoeker teveel begrip toont voor de leefwereld van lotgenoten en de balans tussen nabijheid en afstand verliest. Of



wanneer de patiënt-onderzoeker zich te weinig inleeft in de belangen van onderzoekers en probeert de ander te overtuigen van het belang van participatie. De verschillende verantwoordelijkheden van een patiënt-onderzoeker zijn soms strijdig met elkaar. Als ‘facilitator’ wil je gedrag, denkbeelden of een onderzoekspraktijk veranderen. Die intentie staat soms op gespannen voet met het willen begrijpen van de beweegredenen van de deelnemers. Van de patiënt-onderzoeker vraagt het bewaren van de juiste balans tussen begrijpen en veranderen continue zelfreflectie op het eigen handelen.

### **Reflectie op de bevindingen uit dit proefschrift**

In het laatste hoofdstuk heb ik geprobeerd om de vier gevalsbeschrijvingen vanuit een kritisch perspectief te analyseren. Ik heb daarbij gebruik gemaakt van de theorie van het communicatieve handelen van de Duitse filosoof Jürgen Habermas. Hoe kan patiëntenparticipatie bijdragen aan het overbruggen van de kloof tussen de moderne wereld van medisch wetenschappelijk onderzoek en de alledaagse leefwereld van mensen met een chronische ziekte? Met andere woorden: Onder welke voorwaarden zijn onderzoekers en patiënten in staat om af te zien van hun traditionele posities om op een gelijkwaardig niveau met elkaar in gesprek te gaan over de richting en inhoud van wetenschappelijk onderzoek?

In de praktijk blijkt het lastig om zo’n machtsvrije dialoog te realiseren. In de gevalsbeschrijvingen heb ik voorbeelden gezien waarbij onderzoekers inderdaad in staat bleken om uit het hiërarchische systeem van onderzoek te stappen en om een duurzame relatie met onderzoekspartners op te bouwen. In OMERACT heeft dit geleid tot meer aandacht voor thema’s die voor patiënten belangrijk zijn en die afkomstig zijn uit hun alledaagse leefwereld. Ik heb ook voorbeelden gezien waarin onderzoekers niet in staat bleken om een constructieve dialoog te starten met onderzoekspartners. Soms werd dat veroorzaakt door beperkingen die door het onderzoekssysteem worden opgelegd, maar soms ook door gebrek aan kennis, praktische bezwaren of onbegrip ten aanzien van patiëntenparticipatie.

Met dit proefschrift hoop ik meer inzicht te hebben geboden in de mogelijkheden en beperkingen van patiëntenparticipatie in wetenschappelijk reumaonderzoek. Daarbij hoop ik dat de verschillende hoofdstukken onderzoekers en onderzoekspartners zal inspireren om de ingeslagen weg van dialoog en wederzijdse leren voort te zetten. Tot slot hoop ik dat het ook praktische handvatten en begeleiding zal bieden bij het vormgeven van succesvolle samenwerkingsrelaties.