

Aus der Klinik für Unfallchirurgie, Orthopädie und Plastische Chirurgie

(Prof. Dr. med. W. Lehmann)

der Medizinischen Fakultät der Universität Göttingen

**Lebensqualität und Belastung von Familien mit
Kindern, die aufgrund von
Wirbelsäulendeformitäten operativ mit
wachstumsfreundlichen Implantaten versorgt
wurden**

INAUGURAL-DISSERTATION

zur Erlangung des Doktorgrades
der Medizinischen Fakultät der
Georg-August-Universität zu Göttingen

vorgelegt von

Jennifer Behrend

aus

Göttingen

Göttingen 2020

Dekan: Herr Prof. Dr. med. Wolfgang Brück

Betreuungsausschuss

Betreuerin: Frau Prof. Dr. med. A.-K. Hell

Ko-Betreuer: Herr Prof. Dr. med. E. Wilichowski

Prüfungskommission

Referent/in: Frau Prof. Dr. med. A.-K. Hell

Ko-Referent/in: Herr Prof. Dr. med. E. Wilichowski

Drittreferent/in: Herr Prof. Dr. med. R. Dressel

Datum der mündlichen Prüfung: 12.10.2020

Die Daten, auf denen die vorliegende Arbeit basiert, wurden teilweise publiziert:

Mladenov K, Braunschweig L, **Behrend J**, Lorenz HM, von Deimling U, Hell AK. Validation of the German Version of the EOSQ-24-G shows high reliability. *J Neurosurg Pediatr.* 2019 Mar 8:1-6. doi: 10.3171/2019.1.PEDS18704

Hell AK, Braunschweig L, **Behrend J**, Tsaknakis K, Lorenz HM, von Deimling U, Mladenov K. Health-related quality of life in Early-Onset-Scoliosis patients treated with growth-friendly implants is influenced by etiology, complication rate and ambulatory ability. *BMC Musculoskelet Disord.* 2019 Dec 7;20(1):588. doi: 10.1186/s12891-019-2969-2

Inhaltsverzeichnis

Abbildungsverzeichnis	III
Tabellenverzeichnis	IV
Abkürzungsverzeichnis.....	V
1 Einleitung	1
1.1 Definition der Skoliose.....	1
1.2 Skolioseformen	1
1.2.1 <i>Early-Onset</i> -Skoliosen.....	1
1.2.2 Kongenitale Skoliose.....	1
1.2.3 Idiopathische Skoliose.....	2
1.2.4 Neuromuskuläre Skoliose	2
1.3 Therapie der Skoliose im Kindes- und Jugendalter	3
1.3.1 Konservative Therapie	3
1.3.2 Chirurgische Therapie.....	4
1.3.3 Wachstumsfreundliche Implantate	4
1.3.4 <i>Growing rods</i>	5
1.3.5 <i>Vertical expandable prosthetic titanium rib</i>	5
1.3.6 <i>Magnetic Expansion Control</i>	7
1.4 Gesundheitsbezogene Lebensqualität	9
1.4.1 Instrumente zur Messung.....	9
1.4.2 Fragebogen für Kinder und Jugendliche zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität	10
1.4.3 <i>Early-Onset Scoliosis Questionnaire</i>	11
1.5 Fragestellung der Arbeit	12
2 Material und Methoden	13
2.1 Ethikkommission	13
2.2 Patientenkollektiv	13
2.2.1 Datenschutz.....	13
2.2.2 Einschluss- und Ausschlusskriterien	14
2.3 Messinstrumente.....	14
2.3.1 KINDL®.....	14
2.3.2 EOSQ-24-G	15
2.4 Datenerhebung	18
2.4.1 Fragen- und Dokumentationsbogen	18
2.4.2 Erfassung des Cobb-Winkels	19
2.4.3 Berechnung des <i>Body-Mass-Index</i>	19
2.4.4 Praktische Studiendurchführung.....	19
2.5 Datenauswertung.....	20
2.5.1 Statistische Auswertung.....	21

3	Ergebnisse.....	22
3.1	Validierung der deutschen Version des EOSQ-24	22
3.1.1	Patienteneigenschaften	22
3.1.2	Interne Konsistenz.....	23
3.1.3	Decken- und Bodeneffekt.....	25
3.1.4	Validierung des KINDL®s.....	27
3.2	Patientenkollektiv	27
3.3	Auswertung.....	29
3.3.1	Vergleich des EOSQ-24-G- und des KINDL®-Fragebogens	29
3.3.2	Einfluss des Alters bei Implantation auf die Lebensqualität	30
3.3.3	Einfluss des Geschlechts auf die Lebensqualität.....	32
3.3.4	Einfluss der Diagnose auf die Lebensqualität.....	34
3.3.5	Einfluss des Implantats und der nachfolgenden Operationen auf die Lebensqualität	36
3.3.6	Einfluss der Therapiedauer auf die Lebensqualität.....	39
3.3.7	Einfluss des Cobb-Winkels bei Datenerhebung auf die Lebensqualität	41
3.3.8	Einfluss des Cobb-Winkels bei Primäroperation eines wachstums-freundlichen Implantates auf die Lebensqualität	43
3.3.9	Einfluss der Verbesserung der Skoliose auf die Lebensqualität	45
3.3.10	Einfluss des <i>Body-Mass</i> -Index auf die Lebensqualität.....	47
3.3.11	Einfluss der Wegstrecke zur Klinik auf die Lebensqualität.....	49
3.3.12	Einfluss von Komplikationen auf die Lebensqualität	51
3.3.13	Einfluss der Gehfähigkeit auf die Lebensqualität	55
4	Diskussion.....	59
4.1	Validierung des EOSQ-24-G	60
4.2	Untersuchung von Einflussfaktoren auf die Lebensqualität	63
4.2.1	Faktoren, die keinen Einfluss auf die HRQoL haben	63
4.2.2	Faktoren, die Einfluss auf die HRQoL haben.....	67
4.3	Limitation und Ausblick.....	69
5	Zusammenfassung.....	71
6	Anhang	73
6.1	EOSQ-24-G Fragebogen.....	73
6.2	KINDL® Fragebögen.....	77
6.2.1	KiddyKINDL® Elternversion 3-6 Jahre	77
6.2.2	Kid_KiddoKINDL® 7-14 Jahre	81
7	Literaturverzeichnis	84

Abbildungsverzeichnis

Abbildung 1: Röntgenaufnahme eines 4-jährigen Kindes mit kongenitaler Skoliose und Zustand nach kinder-kardiologischer Operation	7
Abbildung 2: Röntgenaufnahmen eines 8-jährigen Kindes mit operativ behandelte neuromuskulärer Skoliose bei SMA	8
Abbildung 3: Beispiel für Antwortmöglichkeiten bei der Beantwortung einer Frage des EOSQ-24-G	16
Abbildung 4: Verteilung des Total Scores in Bezug auf EOSQ-24-G und KINDL®	30
Abbildung 5: Gesamtpunktzahl in Bezug auf das Alter der Probanden bei Implantation	31
Abbildung 6: Gesamtpunktzahl in Bezug auf das Geschlecht des Kindes	33
Abbildung 7: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die Diagnose der Patienten	35
Abbildung 8: Vergleich der Gesamtpunktzahl zwischen MAGEC® und VEPTR®	38
Abbildung 9: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die Therapiedauer	40
Abbildung 10: Gesamtpunktzahl in Bezug auf den Cobb-Winkel bei Abgabe	42
Abbildung 11: Gesamtpunktzahl in Bezug auf den Cobb-Winkel beim Einbau eines wachstumsfreundlichen Implantats	44
Abbildung 12: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die relative Verbesserung der Krümmung	46
Abbildung 13: Vergleich der Gesamtpunktzahl in Bezug auf den BMI des Kindes	48
Abbildung 14: Bezug der Gesamtpunktzahl auf die Distanz zur behandelnden Klinik	50
Abbildung 15: Gesamtpunktzahl in Bezug auf das Vorkommen von Komplikationen	52
Abbildung 16: Bewertung der Elternbelastung (Q17-Q21) in Bezug auf das Vorkommen von Komplikationen	54
Abbildung 17: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die Gehfähigkeit der Patienten	56
Abbildung 18: Elternbelastung in Bezug auf die Gehfähigkeit der Patienten	58

Tabellenverzeichnis

Tabelle 1: Altersentsprechende Versionen des KINDL®-Fragebogens.....	10
Tabelle 2: Validierungsverfahren des EOSQ-24-G	17
Tabelle 3: Stammblatt zur Datenerhebung.....	18
Tabelle 4: Patientendaten für die Datenauswertung	20
Tabelle 5: Überblick über die Patienteneigenschaften.....	23
Tabelle 6: Analyse der deutschen Version des EOSQ-24-G bezüglich interner Konsistenz	24
Tabelle 7: Deskriptive Statistik des EOSQ-24-G mit Boden- und Deckeneffekt	26
Tabelle 8: Patientenkollektiv	28

Abkürzungsverzeichnis

AIS	Idiopathische Adolescentenskoliose
BMI	<i>Body-Mass-Index</i>
Bzw.	beziehungsweise
EOS	<i>Early-Onset-Skoliosen</i>
EOSQ-24	<i>early-onset scoliosis questionnaire</i>
EOSQ-24-G	<i>early-onset scoliosis questionnaire german</i>
HRQoL	<i>health related quality of life</i>
IIS	Infantile idiopathische Skoliose
JIS	Juvenile idiopathische Skoliose
KiGGS	K inder- und J ugend g esundheitssurvey
MAGEC®	<i>magnetic expansion control</i>
MAP	<i>multitrait analysis program</i>
p.a	<i>posterior/ anterior</i>
TIS	<i>thoracic insufficiency syndrome</i>
UMG	Universitätsmedizin Göttingen
VEPTR®	<i>vertical expandable prosthetic titanium rib</i>

1 Einleitung

1.1 Definition der Skoliose

Die Skoliose ist eine dreidimensionale Deformität der Wirbelsäule mit einem Cobb-Winkel in der Frontalebene von über 10° (Negrini et al. 2018). Mit einer Prävalenz von 0,2-6 % gehört sie zu den häufigsten Deformitäten im Wachstumsalter (Schulze et al. 2015). Unterschieden werden im Kindes- und Jugendalter die kongenitale, idiopathische, neurogene und syndromale Skoliose (Radl et al. 2011).

1.2 Skolioseformen

1.2.1 *Early-Onset-Skoliosen*

Per Definition der *Scoliosis Research Society* beschreibt der Begriff *Early-Onset-Skoliosen* (EOS) Wirbelsäulenverkrümmungen, bei denen die Erstdiagnose vor dem 10. Lebensjahr auftritt (Ridderbusch et al. 2018). Andere Quellen wählen das Alter unterschiedlich. Wynne-Davies (1968) unterteilt die EOS in das Alter unter acht Jahren und die *Late-Onset-Skoliosen* in das Alter über acht ein. Des Weiteren beschreiben Fernandes und Weinstein (2007), dass die EOS sich deutlich von den später auftretenden Skoliosen unterscheiden, nicht nur im Wachstumsmuster, sondern auch durch die Sekundäreffekte, wie die Lungenentwicklung. Es werden vier Subtypen der EOS nach ihrer Ätiologie unterschieden. Es folgt daraus die Unterteilung in kongenital, idiopathisch, neuromuskulär und syndromal (Karol 2019).

1.2.2 **Kongenitale Skoliose**

Die kongenitale Skoliose entsteht in der Embryonalentwicklung. Ursächlich wird das Einwirken von Noxen während der Schwangerschaft vor dem Verknöcherungsstadium des fetalen Skeletts, also vor der 10. Schwangerschaftswoche, vermutet (Hefti 2002). Ebenso wird der Einfluss von Umweltfaktoren wie Vitamin-A-Mangel oder Hypoxie diskutiert und ist im Mausmodell bereits gezeigt worden (Hensinger 2009). Auch einige Syndrome sind mit der kongenitalen Skoliose assoziiert. So weisen 60 % der Patienten mit

Klippel-Feil-Syndrom, einer angeborenen Fehlbildung der Halswirbelsäule, eine kongenitale Skoliose auf (Hensinger 2009).

Es werden Formations- und Segmentationsstörungen unterschieden, eine Kombination aus beiden Anomalien sowie komplexe Wirbelkörperfehlbildungen. Durch das unterschiedliche Wachstumspotenzial kann es zur ausgeprägten Kurvenprogression kommen, die eine frühzeitige chirurgische Intervention unabdingbar macht (McMaster und Ohtsuka 1982; McMaster 1998; Erol et al. 2004; Winter und Lonstein 2010).

1.2.3 Idiopathische Skoliose

Bei der idiopathischen Skoliose handelt es sich ebenfalls um eine Wirbelsäulendeformität im Kindes- und Jugendalter. 80 % der Skoliosen werden als idiopathisch diagnostiziert, besonders die idiopathische Adoleszentenskoliose (AIS). Die Ätiologie ist bis jetzt noch weitgehend ungeklärt (Stücker 2010; Bernstein und Seifert 2015). Sie kann sowohl im Kleinkindesalter als auch erst im Jugendalter auftreten (Fernandes und Weinstein 1955). Die Inzidenz in der Pädiatrie beträgt 0,5-3 % (Altaf et al. 2013). Die Prävalenz variiert zwischen 0,35-13 %, je nach Cobb-Winkel, Alter und Geschlecht. Außerdem sind regionale und ethnische Unterschiede zu verzeichnen (Wong et al. 2005).

Nach ihrer zeitlichen Erscheinung wird sie nochmals unterteilt in die Infantile idiopathische Skoliose (IIS, Entstehung bis zum 3. Lebensjahr), die Juvenile idiopathische Skoliose (JIS, Entstehung zwischen 4. und 10. Lebensjahr) sowie die Idiopathische Adoleszentenskoliose (AIS, Entstehung ab dem 11. Lebensjahr) (McMaster 1983).

1.2.4 Neuromuskuläre Skoliose

Den neuromuskulären Skoliosen liegt eine klare Pathologie zugrunde. Durch neurogene und/oder myogene Schädigung kommt es zu einer Instabilität der Wirbelsäule und im Verlauf zur Entwicklung einer Verkrümmung derselben. Die Schädigung kann auf verschiedensten Ebenen geschehen und ebenso viele Ursachen haben (Carstens 1999), beispielsweise die spinale Muskelatrophie, asymmetrische Muskelkontrakturen, dyskinetische Störungen und spastische unkontrollierte Muskelverspannungen (Zeller 2000). Sie führen zu einer meist bereits präpubertär progredienten C-förmigen Krümmung der instabilen Wirbelsäule, die oft thorakolumbal lokalisiert und mit einem Beckenschiefstand assoziiert ist. Das bedeutet, dass bereits bei kleinen Kindern mit stark ausgeprägten Verkrümmungen

gerechnet werden muss. Die Progredienz endet nicht mit dem Wachstumsabschluss, sondern schreitet je nach Grunderkrankung weiter fort. Die Inzidenz ist von der grundlegenden Erkrankung abhängig. So beträgt sie bei der infantilen Zerebralparese 25-100 %, bei Poliomyelitis 40 %, bei der Duchenne Muskeldystrophie 90 % oder der spinalen Muskelatrophie 67 % (Putzier et al. 2016). Betroffene Kinder mit spinaler Muskelatrophie vom Typ II oder IIIa erkranken fast zu 100 % an einer Skoliose (Haaker und Fujak 2013). Eine konservative Therapie dieser Erkrankung ist oft nicht dauerhaft möglich, da die Verkrümmung stetig fortschreitet und letztendlich zu erheblichen Komplikationen wie starken Schmerzen, Einschränkung der Atemkapazität und allgemein reduzierter Lebensqualität führen kann (Putzier et al. 2016).

1.3 Therapie der Skoliose im Kindes- und Jugendalter

Im Allgemeinen wird zwischen konservativen und operativen Methoden unterschieden. Ziel ist eine Verhinderung oder Verminderung der Progression, die Korrektur von bestehenden Krümmungen und das Halten der Korrektur. Angestrebt wird ein Skoliosewinkel von $< 40^\circ$ nach Erreichen des Wachstumsabschlusses, um die Wahrscheinlichkeit einer notwendigen Operation zu verringern. Entscheidende Faktoren sind das Alter und die Ausprägung der initialen Krümmung (Matussek et al. 2014).

1.3.1 Konservative Therapie

Zur konservativen Therapie der EOS gehören die Physiotherapie, serielle Redressionen mit Rumpfgipsen, Halotractionen und die Korsetttherapie (Stücker und Hasler 2017; Ridderbusch et al. 2018).

Ziel der Physiotherapie ist es, die Muskulatur zu kräftigen, die Stabilität der Wirbelsäule zu verbessern und sekundäre Komplikationen zu verhindern (Ridderbusch et al. 2018). Zusätzlich wird die kardiopulmonale Leistungsfähigkeit, die Haltungsschulung und die Körperwahrnehmung der Patienten optimiert und damit ihr Allgemeinbefinden verbessert (Fekete et al. 2016).

Invasivere Methoden entsprechen der seriellen Redression, eine Technik, in der die Anlage korrigierender Rumpfgipse zum Einsatz kommt (Risser 1955; Stücker und Hasler 2017) oder der Korsetttherapie. Der Erfolg der Korsettbehandlung bedingt jedoch einer guten

Compliance des Patienten, da nur durch dauerhaftes Anlegen des Korsetts eine Verbesserung erreicht werden kann (Ridderbusch et al. 2018; Tsaknakis et al. 2020). Viele junge Skoliosepatienten brauchen jedoch trotz Korsetttherapie ein anschließendes chirurgisches Vorgehen (Stücker und Hasler 2017).

Besonders kongenitale und neuromuskuläre Skoliosen sind mit Hilfe der konservativen Therapie kaum erfolgreich zu behandeln. Letztlich kann aber das Auftreten von sekundär entstanden Ausgleichskrümmungen zum Teil kontrolliert werden (Cunin 2015). Im Umgang mit den konservativen Methoden gibt es viele Unsicherheiten und unkontrollierbare Einflüsse, wie die ungenaue Beschreibung der initialen Verkrümmung, keine standardisierten Korsettbauweisen und Physiotherapievorgehen und mangelnde Compliance der Patienten (Matussek et al. 2015a; Tsaknakis et al. 2020).

1.3.2 Chirurgische Therapie

Die chirurgische Therapie umfasst einen großen Bereich der möglichen Eingriffe. Welches Vorgehen gewählt wird, hängt ganz individuell von der Art der Skoliose, dem Krümmungswinkel und der Progredienz ab (Matussek et al. 2015b). Häufig wird eine Versteifung einzelner Wirbelsegmente vorgenommen („Fusion“), um eine Begradigung der Wirbelsäule zu erreichen. Im Wachstumsalter werden Fusionen wegen der Gefahr des Thoraxinsuffizienzsyndroms nur selten angewandt, sondern durch sogenannte wachstumsfreundliche (*growth friendly*) Implantate ersetzt (Campbell et al. 2003; 2013).

1.3.3 Wachstumsfreundliche Implantate

Durch eine frühzeitige Spondylodese wird der Rumpf in seinem natürlichen Wachstumsvorgang eingeschränkt (Carstens 1999). Der verkleinerte Thorax führt zu einer gestörten Lungenausbreitung und damit zu einem erhöhten Risiko eines Thoraxinsuffizienzsyndroms (Hell et al. 2004). Trotzdem führt weiteres Wachstum ebenfalls zu einer Verschlimmerung der Fehlstellungen und Verkrümmungen, sodass es durch Rumpfknickung zum Verlust von Sitzhöhe und Deformitäten kommen kann (Carstens 1999). Dieses Problem tritt besonders bei früh auftretenden Skoliose-Formen auf, den *Early-Onset*-Skoliosen. Eine Methode, die eine Lösung verspricht, sind die mitwachsenden Implantate, die zwar zu einer Kontrolle der Krümmung führen, aber nicht das weitere

Wachstum der Wirbelsäule einschränken (Klemme et al. 1997; Hell et al. 2004; Lorenz et al. 2017; Hell et al. 2018).

1.3.4 *Growing rods*

Um einen Kompromiss zwischen weiterem Wachstum und Korrektur der Wirbelsäulenverkrümmung zu schaffen, wurden Implantate entwickelt, die die Wirbelsäule aufrichten, ohne sie zu versteifen. Harrington et al. (1962) ist hierbei zu nennen, der als erster solch ein System auf den Markt brachte. Hierbei wurden Konnektoren oberhalb und unterhalb der Krümmung implantiert und dazwischen ausziehbare Stäbe aus rostfreiem Stahl eingehängt. Alle sechs Monate erfolgt eine weitere Operation, in der die Konstruktion distrahert und somit der wachsenden Wirbelsäule Rechnung getragen wird (Hershman et al. 2013). Dabei können die *growing rods* das Wachstum sogar stimulieren, worauf eine höhere Wachstumsrate schließen lässt (Dede et al. 2014).

Als größter Nachteil werden die wiederholten Operationen beschrieben (Dede et al. 2014). Weitere Komplikationen entstanden zudem dadurch, dass es keine weiteren externen unterstützenden Maßnahmen gab, was zu Implantatbruch oder -ausriss führte und zum anderen durch den direkten Kontakt des Stabs zum Knochen, wodurch Narbenbildung und spontane Versteifungen entstanden (Moe et al. 1984; Sankar et al. 2011).

1.3.5 *Vertical expandable prosthetic titanium rib*

Das 1989 von Robert M. Campbell entwickelte *vertical expandable prosthetic titanium rib* (VEPTR®) Implantat ist ein multimodales Baukastensystem aus Titan. Hier können in verschiedenen Größen Aufspannungen von Thorax und Wirbelsäule durch Verankerungen an Rippen, Lendenwirbelsäule und am Beckenkamm erreicht werden (Hell et al. 2004; Campbell 2013). Alle sechs Monate werden die Verbinder operativ in Vollnarkose verlängert, um das „Mitwachsen“ der Implantate zu gewährleisten (Odent et al. 2015).

Mittlerweile stellen neben dem Thoraxinsuffizienzsyndrom und den hypoplastischen Thoraxsyndromen, die progressiven kongenitalen, neuromuskulären und idiopathischen Skoliosen sowie die EOS und Brustwanddefekte eine Indikation zum Einsatz des VEPTR®-Implantats dar (Hell et al. 2004, 2005; Wimmer et al. 2010).

Behandlungsziele sind neben der Vergrößerung des Brustkorbvolumens und der Korrektur der Skoliose, die Wiederherstellung der Thoraxsymmetrie durch Verlängerung des konkaven, restringierten Hemithorax und die Verbesserung der Brustkorbfunktion. Desweiteren sollen Wachstumsinhibitionsprozessen vermieden und die erreichte Verbesserung während der gesamten Wachstumsphase des Kindes erhalten werden (Hell et al. 2004, 2005; Wimmer et al. 2010).

Kontraindikationen stellen zum einen ein zu schlechter Knochenstatus sowie ungenügende Weichteildeckung im Implantationsgebiet dar (Ridderbusch et al. 2013), fehlende kraniale Rippen und ein zu geringes Gewicht. Komplikationen können in Form eines Rippenbruchs, eines Pneumothorax, Implantatbrüchen und -wanderungen, Ossifikationen und Autofusionen sowie Infektionen auftreten (Groenefeld und Hell 2013; Plaass et al. 2016; Wagner et al. 2017; Lorenz et al. 2019). Vorteile des Systems werden darin gesehen, dass beim Implantieren des VEPTR®-Systems keine komplette Freilegung der Wirbelsäule nötig ist, sodass jedenfalls zum Teil von einer Verminderung von Autofusionen an der Wirbelsäule ausgegangen werden kann (Ridderbusch et al. 2013; Lorenz et al. 2017). Ein deutlicher Nachteil stellt, wie auch bei den *growing rods*, die Notwendigkeit zu immer weiteren Verlängerungsoperationen dar (Smith und Campbell 2012). Reoperationen bedeuten immer wieder Risiken einer Anästhesie, Wundinfektionen und Komplikationen. Bakterielle Kolonisation tritt sehr häufig auf (Plaass et al. 2016, Wagner et al. 2017). Auch die psychosozialen Auswirkungen auf die Kinder und die Familien sind nicht zu unterschätzen. Schulausfälle, Arbeitsausfälle, anfallende Kosten sowie durch den Krankenhausaufenthalt erzeugte psychische Effekte, wie ein allgemein schlechteres Wohlbefinden sind zu berücksichtigen (Cheung et al. 2012).

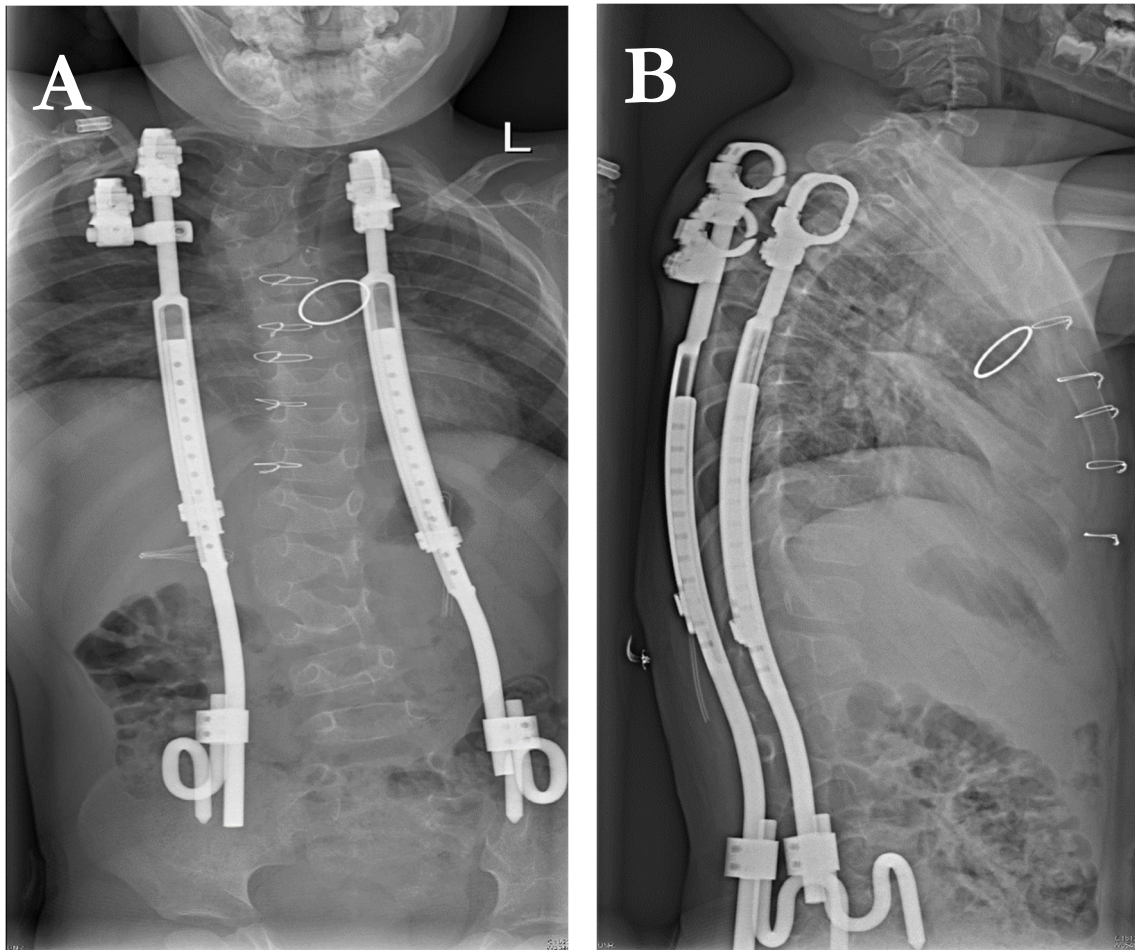


Abbildung 1: Röntgenaufnahme eines 4-jährigen Kindes mit kongenitaler Skoliose und Zustand nach kinder-kardiologischer Operation. Die a.p.-(A) und laterale (B) Röntgenaufnahme des Kindes zeigen eine Behandlung mit dem VEPTR®-Implantat. Es wurde ein beidseitiges Rippen zu Beckenkamm Implantat eingebaut. Dies hat zur zusätzlichen Stabilisierung einen Ausleger auf der rechten Seite kranial. (Röntgenaufnahmen von Patienten der Kinderorthopädie der UMG, 2019)

1.3.6 *Magnetic Expansion Control*

Um die oben genannten Nachteile der Reoperationen zu umgehen, wurde ein System entwickelt, welches eine externe Verlängerung der Implantate möglich macht. *Magnetic Expansion Control* (MAGEC®) ist eine nicht-invasive Methode, die auf Magnetismus beruht und keinerlei chirurgischer Intervention für die Distraction bedarf (Cheung et al. 2012). Cheung et al. (2012) und weitere Autoren konnten frühzeitig die Effektivität dieses Verfahrens nachweisen (Akbarnia et al. 2013; Hickey et al. 2014). Initial werden die Implantate chirurgisch eingebracht und bestehen, wie frühere mitwachsende Systeme, aus teleskopierbaren Stäben, Pedikelschrauben und Haken. Die Stäbe enthalten kleine Magneten, durch die eine externe Verlängerung mit Hilfe einer Fernsteuerung ermöglicht wird. Dabei wird zuerst der Magnet aufgesucht, dann das Gerät über der Wirbelsäule auf der Haut

aufgelegt und manuell bedient. Die Stäbe können sowohl verlängert als auch verkürzt werden. Der Erfolg der Behandlung wird röntgenologisch direkt beurteilt (Ridderbusch et al. 2013). Ein weiterer Vorteil besteht darin, dass durch die Nicht-Invasivität Verlängerungen in kürzeren Abständen stattfinden können, sodass besser auf Wachstumsschübe und individuelle Bedürfnisse der Patienten eingegangen werden kann. Nach einer gewissen Zeit, wenn die Stäbe ihre maximale Länge erreicht haben, muss ein operativer Austausch erfolgen. Im Mittel unterziehen sich die Patienten zwischen zwei und drei Operationen, was ein erheblicher Unterschied zu den bisherigen *growing rod*-Systemen darstellt. Die Magnetstäbe werden so lange verlängert, bis das Wachstum abgeschlossen ist. Danach werden sie explantiert, um anschließend die endgültige Spondylodese vornehmen zu können (Lorenz et al. 2019). Ein allgemeingültiger Konsens über die Häufigkeit der Behandlungen und das Maß der Längenänderung pro Behandlungseinheit fehlt derzeit. Als Nachteile des Systems werden sowohl hohe Revisionsraten, als auch Kosten in der Anschaffung in der Literatur beschrieben (Bekmez et al. 2017).

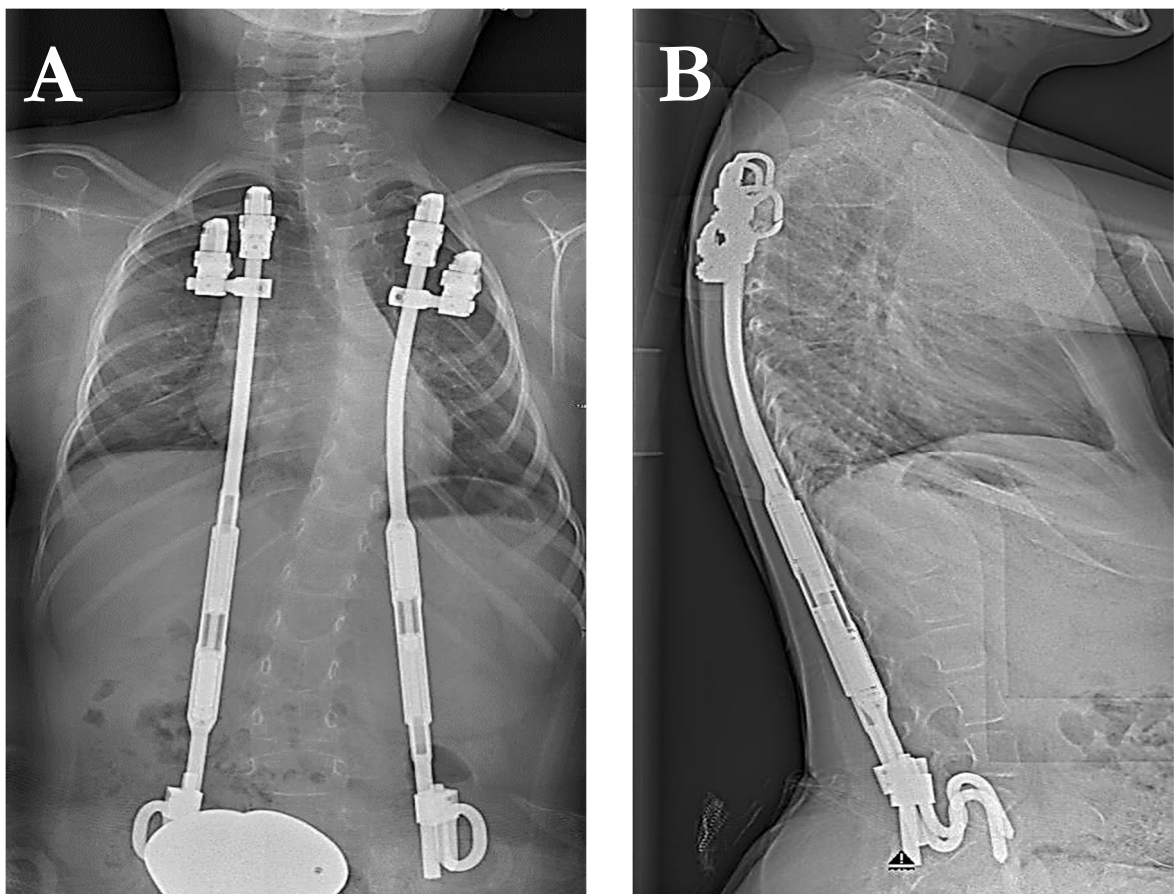


Abbildung 2: Röntgenaufnahmen eines 8-jährigen Kindes mit operativ behandelter neuromuskulärer Skoliose bei SMA. Das a.p.-(A) und laterale (B) Röntgenbild stellt die Behandlung mit dem MAGEC®-Implantat dar. (Röntgenaufnahmen von Patienten der Kinderorthopädie der UMG, 2018)

1.4 Gesundheitsbezogene Lebensqualität

Der Begriff der gesundheitsbezogenen Lebensqualität (*Health Related Quality of Life*, HRQoL) beschreibt ein multidimensionales Konstrukt, welches die subjektive Wahrnehmung des Wohlbefindens des Individuums widerspiegelt. Dabei werden physische Gesundheit, psychisches Wohlbefinden und soziale Integrität als Dimensionen berücksichtigt. Sie ist ein Teil der allgemeinen Lebensqualität, zu der weitere Einflussfaktoren wie Wohlstand, Freiheit, Politik, Kultur, Bildung und Religion gezählt werden (Radoschewski 2000; Ellert et al. 2014; Krause et al. 2014).

Für Kinder und Jugendliche als besonders relevant geltende Komponenten sind zum einen die Selbstwahrnehmung und das Selbstwertgefühl, aber auch das schulische Wohlbefinden und die Qualität der Beziehung zu Eltern und Freunden (Ravens-Sieberer et al. 2007).

In der Entwicklung blieb die Auseinandersetzung mit der gesundheitsbezogenen Lebensqualität in der Medizin lange auf die erwachsenen Patienten beschränkt. Heutzutage wird sie jedoch auch als wichtiges Zielkriterium in der Behandlung von Kindern gesehen, nicht zuletzt, da die chronischen Erkrankungen im Kindes- und Jugendalter zugenommen haben. Es wurde gezeigt, dass nicht nur eine objektive Verbesserung des Gesundheitszustandes anhand klinischer Parameter für den Therapieerfolg wichtig ist, sondern auch die individuelle Bewertung. Negative Einflussfaktoren können neben häufigen Krankenhausaufenthalten und wiederholten Operationen auch die Unsicherheit für die Zukunft darstellen (Ravens-Sieberer 2000). Mit Hilfe der Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität ist es möglich, die Belastungen durch bestimmte Erkrankungen von Patienten und Angehörigen zu beurteilen (Ravens-Sieberer et al. 2007).

1.4.1 Instrumente zur Messung

Die Messung dieses mehrdimensionalen Konstrukts bedarf einer spezifischen Operationalisierung der HRQoL, um den Einfluss von Erkrankungen und die Entwicklung im Krankheitsverlauf transparent zu machen (Daig und Lehmann 2007). In der Erhebung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität werden krankheitsspezifische Aspekte von krankheitsübergreifenden (generischen) unterschieden. Krankheitsspezifisch bedeutet, dass Aspekte der Lebensqualität bei bestimmten Erkrankungen erhoben werden. Vorteile dabei sind die Sensitivität und die Interpretierbarkeit der Veränderungen im Gesundheitsstatus. Generische Instrumente können einen übergreifenden Vergleich zwischen Interventionen verschiedener Erkrankungen abbilden (Radoschewski 2000). Hier ist der *Short Form-36 Health*

Survey (SF-36) zu nennen, der als häufiges generisches Instrument zur Erfassung der Lebensqualität Anwendung findet (McHorney et al. 1994; Radoschewski 2000; Morfeld und Bullinger 2008; Bullinger et al. 2015).

1.4.2 Fragebogen für Kinder und Jugendliche zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität

Als einer der wenigen ist der KINDL®-Fragebogen erstmalig in deutscher Sprache erschienen. Er wurde 1994 von Frau Prof. Monika Bullinger entworfen und 1998 von Ravens-Sieberer und Bullinger revidiert (Ravens-Sieberer 2000). Der Fragebogen ist ein generisches Instrument und umfasst sechs Dimensionen mit insgesamt 24 Items, die sich auf die Gebiete Körper, Psyche, Selbstwert, Familien, Freunde und funktionale Aspekte beziehen. Für verschiedene Altersgruppen bestehen etwas abgewandelte Variationen des Fragebogens. So liegen insgesamt drei Versionen für die Kinder zwischen 3-17 Jahren vor. Dabei gibt es jeweils eine Kinder- sowie eine Elternversion:

Tabelle 1: Altersentsprechende Versionen des KINDL®-Fragebogens

Alter:	Fragebogen:
4-6 Jahre	KiddyKINDL® (4-6 Jahre als Kinderversion, 3-6 Jahre als Elternversion)
7-13 Jahre	KidKINDL® (7-13 Jahre als Kinderversion) Kid_KiddoKINDL® (7-17 Jahre als Elternversion)
14-17 Jahre	KiddoKINDL® (14-17 Jahre als Kinderversion)

Des Weiteren können verschiedene Module ergänzt werden, die zum Beispiel auf spezifische Erkrankungen wie Adipositas oder *Spina bifida* abzielen oder auch auf chronische Erkrankungen bzw. wiederkehrende Krankenhausaufenthalte eingehen (Körner et al. 2006; Krause et al. 2014). Nach psychometrischen Studien umfasst dieser Fragebogen eine gute Reliabilität sowie Validität und wird von Patienten und Angehörigen gut angenommen. Zudem ist es möglich, sowohl generische Aspekte als auch spezifische Belastungen von Erkrankungen sowie Veränderungen im Entwicklungsverlauf zu erfassen (Ravens-Sieberer 2000). Normwerte und Standardabweichungen wurden durch den Kinder- und Jugendgesundheitsurvey (KiGGS) des Robert-Koch-Instituts veröffentlicht (Ellert et al. 2014). Ziel war es Referenzdaten zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern und

Jugendlichen in Deutschland unter Verwendung eines international standardisierten Fragebogeninstrumentes (KINDL®) zu erfassen. Diese Studie wurde von 2003 bis 2006 bundesweit in Deutschland durchgeführt. Dafür wurden insgesamt 14.836 Kinder im Alter von 3-17 Jahren befragt. Innerhalb der Skala von 0-100 zu vergebenen Punkten, lagen die gewonnen repräsentativen Normdaten für die Elternversion bei 69,7-80,3 und bei 58,3-81,9 Punkten für die Kinderversion. Des Weiteren konnten Unterschiede in den verschiedenen Altersklassen, den Geschlechtern und sozialen Bedingungen veranschaulicht werden. Diese Daten sollen nun als Norm- und Vergleichswerte für weitere Untersuchungen gelten (Ravens-Sieberer et al. 2007).

1.4.3 Early-Onset Scoliosis Questionnaire

Ein spezifisches und sehr wichtiges Ziel in der Behandlung der Kinder und Jugendlichen mit *Early-Onset*-Skoliosen, ist die Verbesserung ihrer Lebensqualität und ebenso die Minimierung der Belastungen ihrer Familie und Angehörigen. Es besteht ein Unterschied zwischen krankheitsspezifischen und generischen Instrumenten zur Bestimmung der HRQoL. Beide Instrumente haben Vor- und Nachteile in ihrer Anwendbarkeit. Vitale et al. beschrieben klare Grenzen der generischen Messung, um aussagekräftige Ergebnisse zum Beispiel vor und nach einer Operation zu erhalten und sahen eine Notwendigkeit in dem Einsatz eines krankheitsspezifischen Instruments für diese Patienten (Vitale et al. 2008; Matsumoto et al. 2016).

Der *Early-Onset Scoliosis Questionnaire* (EOSQ-24) ist ein krankheitsspezifischer Fragebogen für Patienten mit *Early-Onset*-Skoliosen und ihre Betreuer. Er umfasst acht Domänen (Allgemeiner Gesundheitszustand, Schmerz, Lungenfunktion, Mobilität, Alltagsleben, emotionales Befinden, Körperfunktionen und Müdigkeit), zudem noch auf die Betreuer gezielte Domänen (Belastung, finanzielle Auswirkungen) sowie Fragen zur Zufriedenheit von Kind und Betreuer. Insgesamt besteht er aus 24 Items, die anhand einer Likert-Skala (1-5) beantwortet werden können (Doany et al. 2018).

Matsumoto et al. (2016) beschrieben in einer Studie die Validität, Reliabilität und Aussagekraft des EOSQ-24. Um die Kriterien-Validität zu überprüfen, verglich er die Ergebnisse des Fragebogens mit den Ergebnissen von Lungenfunktionstests. Patienten mit schlechter Lungenfunktion wiesen hierbei eine schlechtere HRQoL auf, was die Wichtigkeit der Verbesserung der Lungenentwicklung in der Behandlung von EOS nochmals unterstreicht. Auch eine korrelierende Konstrukt-Validität sowie eine hohe

Test-Retest-Reliabilität wurden gemessen. Anhand dieser Studie wird deutlich, dass mit Hilfe des EOSQ-24 auch der Erfolg einer chirurgischen Intervention, in Bezug auf die Lebensqualität bei EOS-Patienten, verdeutlicht werden kann (Matsumoto et al. 2016). Um auch in anderen Sprachen Anwendung zu finden, wurde der EOSQ-24 durch Hin- und Rückübersetzung validiert. Evaluationen ergaben valide Ergebnisse in der türkischen (Demirkiran et al. 2015), spanischen (del Mar Pozo-Balado et al. 2016), chinesischen (Cheung et al. 2016) und auch der norwegischen Version (Molland et al. 2018).

1.5 Fragestellung der Arbeit

Für einen positiven Therapieverlauf erwies sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität als prägnanter Faktor in der Behandlung erkrankter Kinder (Ravens-Sieberer 2000). Zur Erfassung dieses subjektiven Empfindens stehen mittlerweile verschiedene Messinstrumente zur Verfügung, durch die eine objektive Bewertung ermöglicht wird. Operationen und Krankenhausaufenthalte werden bereits in der bestehenden Literatur als Einflussfaktoren diskutiert (Flynn et al. 2012; Aslan et al. 2017).

Desweiteren werden wiederholte Operationen, wie sie bei VEPTR®-Patienten zur Verlängerung der Implantate alle sechs Monate notwendig sind, mit einer erhöhten Komorbidität und erheblichen Komplikationsraten assoziiert. Bess et al. (2010) demonstrierten ein 58 %iges Risiko einer Komplikation bei Reoperationen. In der vorliegenden Arbeit sollte untersucht werden, ob der deutschsprachige EOSQ-24 (EOSQ-24-G) ein valides Messinstrument zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität bei Patienten mit EOS in Deutschland ist. Desweiteren stellt sich die Frage, ob EOS Patienten mit extern zu verlängernden Implantaten und damit weniger Operationen, einen höheren Wert im EOSQ-24-G erreichen als Kinder mit wachstumsfreundlichen Implantaten, die wiederholt operativ verlängert werden. Werden sich Unterschiede in der familiären Belastung zwischen beiden Behandlungsgruppen ergeben und gibt es messbare Unterschiede in der Analyse der gesundheitsbezogenen Lebensqualität zwischen dem EOSQ-24-G und dem KINDL®-Fragebogen? Ziel ist die Erfassung der Bewertung der Lebensqualität in den Familien von Kindern mit Wirbelsäulenverkrümmungen sowie das Aufzeigen von Einflussfaktoren.

2 Material und Methoden

2.1 Ethikkommission

Die Ethikkommission der Georg-August-Universität prüfte den Studienantrag mit dem Titel „Lebensqualität und Belastung von Familien mit Kindern, die aufgrund von Wirbelsäulendeformitäten wiederholt operiert werden müssen“ und genehmigte ihn am 03.01.2018 unter der Antragsnummer 21/9/17.

2.2 Patientenkollektiv

Nach Genehmigung durch die Ethikkommission wurden alle Familien, deren Kinder (< 18 Jahre) an einer Wirbelsäulendeformität in der UMG wiederholt operiert wurden, gebeten, an der Studie teilzunehmen. Das Informationsmaterial wurde ausgehändigt. Diese retrospektive Erfassung, der sich bereits in Behandlung befindlichen Familien sowie die wiederholte prospektive Erfassung neuer Patienten wurde unter der Leitung von Prof. Dr. med. A.-K. Hell an der Klinik für Unfallchirurgie, Orthopädie und Plastische Chirurgie im Schwerpunkt der Kinderorthopädie der Universitätsmedizin Göttingen vom April 2018 bis September 2018 durchgeführt. Der Zeitraum der Studie wurde auf ein halbes Jahr festgelegt, da die MAGEC®-Verlängerungen alle drei Monate und die VEPTR®-Operationen alle sechs Monate wiederholt werden, sodass nach einem halben Jahr der Großteil, der in der UMG in Behandlung befindlichen Patienten, einmal vorstellig wurde. Insgesamt befragten wir in diesem Zeitrahmen 45 Familien.

2.2.1 Datenschutz

Jedem Patienten wurde eine Nummer zugeordnet, von der nicht auf die Identität des Kindes zurückgeschlossen werden konnte. Alle Daten wurden ausschließlich in den Räumlichkeiten des Universitätsklinikums Göttingen aufbewahrt. Über diese Art der Pseudonymisierung wurden die Patienten und ihre Eltern mündlich und schriftlich aufgeklärt. Ihre Zustimmung erfolgte durch eine Unterschrift der Aufklärung.

2.2.2 Einschluss- und Ausschlusskriterien

Mit dem Einverständnis der Eltern wurden alle Patienten unter 18 Jahren mit Skoliose unabhängig der Ätiologie, die in der Universitätsmedizin Göttingen routinemäßig am VEPTR®-System operiert oder bei denen eine Verlängerung der MAGEC®-Implantate durchgeführt wurde, in die Studie aufgenommen. Ausgeschlossen waren Patienten > 18 Jahre, Familien, die nicht fähig oder gewillt waren, eine schriftliche Einverständniserklärung abzugeben und Familien, die sich in der deutschen Sprache nicht ausreichend verständigen konnten.

2.3 Messinstrumente

2.3.1 KINDL®

Aus den unterschiedlichen Versionen des KINDL®-Fragebogens wurden in der vorliegenden Arbeit ausschließlich die Elternversionen, der KiddyKINDL® (3-6 Jahre) und der Kid_KiddoKINDL® (7-14 Jahre) verwendet (siehe Anhang). Dieser generische Fragebogen besteht aus 24 Fragen, die folgende Themenbereiche berücksichtigen: Körperliches Wohlbefinden, psychisches Wohlbefinden, Selbstwert, Familie, Freunde und Funktionsfähigkeit im Alltag (Schule, Kindergarten).

Zu jeder dieser sechs Dimensionen werden vier Fragen gestellt, sodass am Ende 24 Items entstehen. Jede der 24 Fragen hat fünf Antwortmöglichkeiten: nie, selten, manchmal, oft, immer.

2.3.1.1 Validierung und Reliabilität

Die Reliabilität des durch Frau Prof. Ulrike Ravens-Sieberer und Frau Bullinger etablierten KINDL®-Fragebogens wurde anhand des *Multitrait Analysis Program* des *New England Medical Center* der *Tuffis University* in Boston (MAP) 2007 berechnet. Es ergab sich eine gute interne Konsistenz sowie faktorielle und konvergente Validität des Fragebogens. In Bezug auf die diskriminante Validität zeigten sich deutliche Unterschiede in der Beeinträchtigung zwischen erkrankten und nicht erkrankten Kindern sowohl im Gesamtscore als auch in den einzelnen Dimensionen (Ravens-Sieberer et al. 2007).

2.3.1.2 Sensitivität

Die Sensitivität des Fragebogens wurde anhand eines Reha-Aufenthaltes geprüft. Die chronisch kranken Kinder bekamen den Fragebogen vor und nach der Maßnahme ausgeteilt.

Die Ergebnisse zeigten eine deutliche Verbesserung der Werte in allen Dimensionen nach der Rehabilitation (Ravens-Sieberer et al. 2000).

2.3.1.3 Auswertung und Interpretation

Für die Auswertung der Ergebnisse wurden die Punkte der gegebenen Antworten addiert. Dabei bedeutete ein hoher Wert (z. B. 5) eine bessere gesundheitsbezogene Lebensqualität als ein niedriger Wert (z. B. 1). Einige Fragen mussten für diesen Vorgang umgepolt werden. Durch die Addition entstanden verschiedene Skalen mit Rohwerten, die durch eine Transformation die Werte von 0-100 ergaben.

$$\text{Auf 100 transformierte Skalen} = \frac{\text{Scalenscore} - \text{niedrigst möglicher Score}}{\text{Mögliche Spannweite des Rohwerts}} \times 100$$

Auch hier bedeuteten niedrige Punktzahlen eine schlechtere gesundheitsbezogene Lebensqualität, höhere Punktzahlen eine bessere gesundheitsbezogene Lebensqualität.

2.3.2 EOSQ-24-G

Der EOSQ-24 (siehe Anhang) umfasst insgesamt 24 Fragen, die sich folgenden Themenbereichen zuordnen lassen: Allgemeiner Gesundheitszustand, Schmerzen, Atemfunktion, Mobilität, Körperfunktion, Alltagsleben, Müdigkeit und Ausdauer, emotionale Entwicklung, Belastung für die Eltern, finanzielle Auswirkungen sowie Zufriedenheit (Matsumoto et al. 2018).

Zu diesen Themenbereichen werden bis zu fünf Fragen gestellt. Die einzelnen Bereiche lassen sich zu drei Schwerpunkten zusammenfassen, in denen sich die Lebensqualität der Kinder, die Belastungen der Betreuer sowie die Zufriedenheit der Kinder und Eltern wiederfinden.

Der EOSQ-24-G umfasst insgesamt 16 Fragen zu der Lebensqualität des Kindes, sechs Fragen zu den psychischen, familiären und finanziellen Belastungen der Eltern, eine Frage zur Zufriedenheit des Kindes mit sich selbst und eine Frage, die die Zufriedenheit der Eltern mit ihrem Kind beantworten soll.

Bei den Fragen handelt es sich um geschlossene Fragetypen, die anhand einer Likert-Skala beantwortet werden. Pro Frage gilt es eine von fünf vorgegebenen Antworten anzukreuzen.

Schmerzen/Unwohlsein: in den vergangenen 4 Wochen				
3. Wie oft hatte Ihr Kind Schmerzen oder hat sich nicht wohl gefühlt?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie

Abbildung 3: Beispiel für Antwortmöglichkeiten bei der Beantwortung einer Frage des EOSQ-24-G (Mladenov et al. 2019).

2.3.2.1 Interpretation des EOSQ-24-G

Den anzukreuzenden Antworten werden Punktwerte von 1 bis 5 zugeordnet. Niedrige Punktzahlen bedeuten eine sehr hohe Belastung für Kind und Familie. Entsprechend geben hohe Punktwerte eine niedrigere Belastung an.

Bei jedem Unterthema wird der Mittelwert berechnet, der folglich zwischen eins und fünf liegen kann.

Der Mittelwert errechnet sich durch Summation der Einzelwerte dividiert durch die Anzahl der berücksichtigten Werte. In einem weiteren Schritt wird dann anhand der folgenden

Formel eine Punktzahl ermittelt:

$$\frac{(\text{Mittelwert}-1)}{4} \times 100.$$

Die Punktzahl liegt somit zwischen minimal 0 und maximal 100 Punkten.

Auch hier gilt: Null Punkte beschreiben ein ungünstiges Ergebnis (hohe Belastung für das Kind) und 100 Punkte das maximale Ergebnis, zu werten als niedrige Belastung für das Kind und die Eltern. Durch diese Gemeinsamkeit mit dem KINDL®-Fragebogen, lassen sich die Ergebnisse nachfolgend gut vergleichen.

2.3.2.2 Validierungsprozess

Der EOSQ-24 wurde zunächst im englischen Sprachraum entwickelt (Matsumoto et al. 2018). Um jedoch aussagekräftige und reliable Informationen zu bekommen, ist ein Fragebogen in der Muttersprache für ein optimales Verständnis des Patienten und dessen Angehörigen von Vorteil.

Daher wurde als Teil der Arbeit in einem aufwändigen Validierungsverfahren der EOSQ-24 ins Deutsche übersetzt und validiert (EOSQ-24-G).

Tabelle 2: Validierungsverfahren des EOSQ-24-G

Phase:	Arbeitsschritt:
1	Übersetzung des Originalfragebogens auf Deutsch durch zwei unabhängige Personen mit englischen Sprachkenntnissen (T1 und T2)
2	T1 und T2 vergleichen die Übersetzungen, diskutieren über Unterschiede und erstellen eine vorläufige Version (V1) mit konsensfähigen Formulierungen.
3	Erstellung einer „Backwards“ Übersetzung der V1 durch zwei englische „native speakers“ (N1 und N2)
4	Evaluierung der Berichte von T1, T2, N1, N2 durch eine Expertenkommission, die sich aus fünf deutschsprachigen Mitgliedern der Arbeitsgruppe «Wachsende Wirbelsäule» der Deutschsprachigen Vereinigung Kinderorthopädie zusammensetzte, und Freigabe der endgültigen Version (VE).
5	Validierung an einem Patientenkollektiv (n = 67 aus zwei Kliniken, Universitätsmedizin Göttingen und Asklepios Kinderklinik Sankt Augustin)

2.3.2.3 Validierung und Reliabilität

Um die Reliabilität oder die interne Konsistenz unserer Skalen zu überprüfen, wurde Cronbachs Alpha (α) berechnet, eine Maßzahl, die besonders häufig in der Psychologie Anwendung findet. Cronbachs α kann Werte zwischen $-\infty$ und 1 annehmen, wobei nur Werte zwischen 0,7 und 0,95 anzustreben sind. Durch diese Berechnung erhält man den Grad der Übereinstimmung von mehreren Fragen in einem Fragebogen bzw. das Ausmaß, in dem die Fragen untereinander in Beziehung stehen. Um die Trennschärfe zu ermitteln, wird die korrigierte Item-Skala-Korrelation sowie die Inter-Item-Korrelation bestimmt. Sie ist ein Maß dafür, wie hoch ein einzelnes Item mit der Gesamtskala korreliert und somit das Ergebnis des Tests widerspiegelt. Es können Werte zwischen -1 und 1 entstehen. Ein hoher Wert gibt an, dass das Item etwas Ähnliches abbildet wie der Gesamttest. Items, die eine niedrige Korrelation von $< 0,3$ aufweisen, sollten entfernt oder überarbeitet werden, da sie nicht das abbilden, was der Gesamttest abbildet. Um eine bessere interne Konsistenz zu erhalten, können in der Testanalyse einzelne Items in der Berechnung von Cronbachs α weggelassen werden. Dabei wird die Berechnung für das Weglassen jedes einzelnen Items durchgeführt, um den Effekt jedes Items darzustellen. Eine negative korrigierte Item-Skala-Korrelation deutet auf eine gegensätzliche Aussage des Items in Bezug auf den Gesamttest hin.

Es wurde eine Datenanalyse durchgeführt und dabei die Standardabweichung, der Mittelwert sowie der Prozentsatz der fehlenden Daten bestimmt. Um den Boden- und Deckeneffekt zu erzielen, wurde die Häufigkeit für die Minimal- und Höchstwerte für eine Frage auf < 30 % festgelegt. Beim Boden- bzw. Deckeneffekt handelt es sich um Messfehler, die auf Unter- bzw. Überschreiten des Messbereichs beruhen. Dies kann zutreffen, wenn ein Test zu leicht oder zu schwer ist bzw. nur positive oder nur negative Antworten auf eine Frage gegeben werden.

2.4 Datenerhebung

2.4.1 Fragen- und Dokumentationsbogen

Für jeden Probanden wurde ein Stammbblatt ausgefüllt, welches als einziges die genaue Zuordnung des Namens zu einer pseudonymisierten Patientenidentifikationsnummer enthielt. Zusätzlich wurde zu jedem stationären Aufenthalt der Probanden ein Untersuchungsbogen erstellt, welcher nur mit der Nummer versehen wurde.

Tabelle 3: Stammbblatt zur Datenerhebung

	Informationen zu:
1.	Geburtsdatum
2.	Geschlecht
3.	Größe und Gewicht
4.	Datum der Primäroperation an der Wirbelsäule
5.	Typ des Implantats (z. B. VEPTR® oder MAGEC®)
6.	Anzahl der bisherigen Operationen
7.	Komplikationen bei der bisherigen Versorgung
8.	Wichtige Grunderkrankungen in Bezug auf die Skoliose (z. B. Spinale Muskelatrophie, Myelomeningozele, kongenitale Skoliose, idiopathische Wirbelsäulendeformität)
9.	Weitere Grunderkrankungen, die einen Risikofaktor darstellen (z. B. Diabetes mellitus, immunsupprimierende Grunderkrankungen, Asthma bronchiale, Epilepsie)
10.	Medikamenteneinnahme

2.4.2 Erfassung des Cobb-Winkels

Der Cobb-Winkel ist ein Messinstrument zur Erfassung der Stärke der Skoliose. Zur Berechnung dient eine Röntgenaufnahme des Patienten unter Belastung, auf der die gesamte Wirbelsäule abgebildet wird. Anhand der Cobb Methode können die Haupt- sowie Nebenkrümmungen bestimmt werden. Mit Hilfe der Wirbelkörper, deren Position am meisten von der Horizontalen abweichen, wird die kraniale und kaudale Begrenzung der Krümmung festgelegt. Von der Deck- oder Bodenplatte dieser sogenannten Neutralwirbel werden Geraden angelegt, die sich in einem Schnittwinkel kreuzen. Dieser Winkel wird als Cobb-Winkel beschrieben (Cobb et al. 1948).

2.4.3 Berechnung des *Body-Mass-Index*

Zur Ermittlung des *Body-Mass-Index* (BMI) wurde ein spezieller BMI-Rechner für Kinder verwendet. Hierzu wurden das Gewicht und die Größe der Probanden gemessen und anschließend in die Formel: Körpergröße/(Körpergewicht)² eingesetzt. Anders als bei den Erwachsenen werden ebenfalls das Alter und das Geschlecht berücksichtigt. Mit Hilfe von Perzentilen kann nun eine Gruppierung in Untergewicht, Normalgewicht und Übergewicht vorgenommen werden. Ein Ergebnis um die 50. Perzentile gibt das Normalgewicht an, also das exakte Durchschnittsgewicht, unterhalb der zehnten Perzentile befindet sich das Kind im Untergewicht und oberhalb der 85. Perzentile im Übergewicht. Für jedes Alter kann so geschlechtsspezifisch die Einteilung nach BMI erfolgen (BMI Rechner Kinder & Jugendliche).

2.4.4 Praktische Studiendurchführung

Im Rahmen der ambulanten oder stationären Aufnahme zu operativen Eingriffen oder Verlängerungen, wurden die Patienten, welche die obengenannten Einschlusskriterien erfüllten, und ihre Eltern nach Abschluss der üblichen präoperativen Vorbereitungen (einschließlich der chirurgischen Aufklärung), über den Sinn und Zweck der Studie und den Studienablauf schriftlich und mündlich aufgeklärt. Diesbezüglich wurde ihnen ein Informationsbogen (siehe Anhang) ausgehändigt. Sie wurden darüber informiert, dass die Teilnahme freiwillig ist und jederzeit ohne Angaben von Gründen zurückgezogen werden kann. Die Daten wurden nur erhoben, wenn die schriftliche Einwilligung der Patienten, beziehungsweise bei Minderjährigen die Einwilligung der Erziehungsberechtigten, vorlag.

Die Minderjährigen wurden zusätzlich altersentsprechend aufgeklärt. Wenn der/die Patient/-in zu einer Verlängerungsoperation aufgenommen wurde, erfolgte eine Überprüfung der Unterlagen auf Aktualität und Vollständigkeit sowie die erneute Einholung einer schriftlichen Patienteneinwilligung.

Nach erfolgter Aufklärung und dem Einverständnis wurden den Familien der EOSQ-24-G und die altersgerechte KINDL®-Version ausgehändigt (siehe Anhang; Ravens-Sieberer und Bullinger 1998). Der Zeitaufwand zur Beantwortung der beiden Fragebögen lag bei etwa 15 Minuten.

2.5 Datenauswertung

Nach der Datenerhebung ergab sich eine Stichprobe von $n = 45$. Davon wurden 19 Kinder mit dem VEPTR®-System und 26 Kindern mit den MAGEC®-Implantaten behandelt. Zum Auswerten der Ergebnisse wurden alle Daten in einer Tabelle mit Hilfe des Microsoft-Excel-Programms zusammengetragen:

Tabelle 4: Patientendaten für die Datenauswertung

	Patientendaten zu:
1.	Alter
2.	Geschlecht
3.	Größe und Gewicht bei Abgabe des Fragebogens
4.	PLZ des Wohnortes und damit die Distanz zur UMG
5.	Diagnose bzw. Arte der Skoliose
6.	Cobb-Winkel bei Diagnose
7.	Cobb-Winkel bei Abgabe der Fragebögen
8.	Art des Implantats
9.	Implantationsdatum
10.	Komplikationen
11.	Gehfähigkeit

Aus den Punktzahlen der Fragebögen ließen sich die Rohwertskalen berechnen. Durch die oben genannten Formeln wurden diese für den KINDL® als auch für den EOSQ-24-G transformiert und ergaben nun Werte von 0-100. Durch diese Transformation lassen sich beide Fragebögen anschaulicher vergleichen. Zuerst wurde der Total-Score für beide Fragebögen berechnet, indem der Mittelwert aller Gesamtpunktzahlen ermittelt wird.

Anhand der oben aufgeführten Stammdaten ließen sich weitere Skalen aufführen, die sich auf spezifische Merkmale beziehen wie das Geschlecht, das Gewicht, die Distanz zur Klinik oder die Therapieform. Anhand dieser Zusammenführung von Stammdaten und Fragebogen lassen sich Einflusskriterien auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität ableiten.

2.5.1 Statistische Auswertung

Für die statistische Analyse wurde mit allen Daten sowohl eine Varianzanalyse als auch der Post-hoc-Test durchgeführt. Der Post-hoc Test ist ein Signifikanztest, der darüber Auskunft gibt, welche Mittelwerte sich signifikant voneinander unterscheiden. Für diese Analyse wurde das Programm Statistica verwendet (Dell, USA). Signifikanzen wurden als p-Wert (nach R.A. Fisher) angegeben.

3 Ergebnisse

3.1 Validierung der deutschen Version des EOSQ-24

In einem Gemeinschaftsprojekt der Kinderorthopäden der Asklepios Kinderklinik Sankt Augustin und der UMG wurde die Validierung der deutschen Version des EOSQ-24-G überprüft. Es ergab sich ein Patientenkollektiv von $n = 67$, von denen 43 Fragebögen aus der UMG und 24 von den Patienten der Asklepios Kinderklinik Sankt Augustin stammten.

3.1.1 Patienteneigenschaften

Es galten die gleichen Ein- bzw. Ausschlusskriterien für die Teilnehmer der anschließenden Studie zur Therapieevaluation. In Tabelle 5 sind die Patienteneigenschaften der Teilnehmer aufgezeigt. In dem gesamten Kollektiv waren 34 Kinder weiblichen und 33 männlichen Geschlechts. Es wurden vier Arten der Early-Onset Skoliose untersucht: neuromuskulär ($n = 29$), kongenital ($n = 17$), idiopathisch ($n = 10$) und syndromal ($n = 11$). Neben den Patienten, die ohne eine gezielte Therapie behandelt wurden ($n=7$) sowie den Kindern mit konservativer Korsetttherapie ($n = 5$), wies die Mehrheit ($n = 55$) ein wachstumsfreundliches Implantat auf. 26 der Kinder besaßen die VEPTR®-Stäbe, 25 das MAGEC®-Implantat und vier von ihnen andere wachstumsfreundliche Implantate, die hier nicht weiter differenziert werden sollen. Das durchschnittliche Alter der Kinder lag bei 8,7 Jahren, mit einer Spanne zwischen 3,1 und 17 Jahren.

Tabelle 5: Überblick über die Patienteneigenschaften

Variabel	Wert
Anzahl der Patienten	67
weiblich	34
männlich	33
Art der Skoliose (Anzahl der Patienten)	
neuromuskulär	29
kongenital	17
idiopathisch	10
syndromal	11
Therapieart (Anzahl der Patienten)	
Beobachtung	7
konservative Korsettbehandlung	5
wachstumsfreundliche Implantate	55
VEPTR®	26
MAGEC®	25
andere	4
Durchschnittsalter bei Abgabe der Fragebögen in Jahren	8,7 (3,1-17,1)

VEPTR® = *vertical expandable prosthetic titanium rib*; MAGEC® = *magnetically controlled implant*

3.1.2 Interne Konsistenz

Zur Bestimmung der Reliabilität des Fragebogens wurde Cronbachs α sowie die Trennschärfe der Items ermittelt. Es ergab sich ein Wert von $\alpha = 0,9003$ für die Gesamtskala, was einer sehr guten Reliabilität entspricht. Ebenfalls wurde das Verhalten von α untersucht, wenn ein Item aus der Wertung genommen wurde (Tabelle 6). Diese Vorgehensweise wurde für jede Frage angewandt und ergab Werte zwischen 0,891 für die Frage 8, welche sich auf die selbständige Bewegung des Oberkörpers des Kindes bezieht, und 0,903 für Frage 12, die sich mit der selbstständigen Nahrungsaufnahme befasst.

Die Itemtrennschärfe lag für alle Fragen über 0,3. Es entstanden Werte zwischen 0,315 und 0,696. Die Korrelation zwischen den einzelnen Items errechnete sich zwischen 0,352 und 0,963. Diese Ergebnisse spiegeln eine gute interne Konsistenz wider.

Tabelle 6: Analyse der deutschen Version des EOSQ-24-G bezüglich interner Konsistenz

Variabel	Itemtrennschärfe	Cronbachs α wenn Item weggelassen
Allg. Gesundheitszustand		
Q1	0,424	0,898
Q2	0,456	0,897
Schmerz		
Q3	0,629	0,895
Q4	0,468	0,897
Lungenfunktion		
Q5	0,489	0,897
Q6	0,454	0,897
Mobilität		
Q7	0,617	0,893
Körperfunktionen		
Q8	0,696	0,891
Q9	0,561	0,895
Q10	0,571	0,895
Alltagsleben		
Q11	0,660	0,892
Q12	0,315	0,903
Müdigkeit		
Q13	0,462	0,897
Q14	0,483	0,897
Emotionales Empfinden		
Q15	0,376	0,899
Q16	0,319	0,900
Elternbelastung		
Q17	0,400	0,898
Q18	0,658	0,892
Q19	0,587	0,894
Q20	0,585	0,894
Q21	0,618	0,895
Finanzielle Auswirkung		
Q22	0,356	0,899
Zufriedenheit		
Q23	0,488	0,897
Q24	0,459	0,897

3.1.3 Decken- und Bodeneffekt

Nach Evaluation der Fragebögen ($n = 67$) ergab sich ein Prozentsatz von 1,7 % für fehlende Daten. 18 Fragen wurden komplett oder maximal einmal nicht beantwortet (Tabelle 7). Für die Frage Q10, die sich auf den Gleichgewichtssinn bezieht, wurden am häufigsten fehlende Antworten detektiert. Hierfür ergab sich der Wert von $n = 7$, was 10,4 % entspricht. Um zu überprüfen, ob die einzelnen Fragen auch das Potential haben, die gesamte Varianz abzubilden, wurden der Decken- und Bodeneffekt errechnet. Die Mittelwerte der Fragen befanden sich zwischen 2,71 für Frage Q12 und 4,71 für Frage Q5. Q12 war dabei die einzige Frage, die einen Wert < 3 erreichte. Desweiteren wurde die Standardabweichung errechnet. Hier ergab sich ein minimaler Wert von 0,67 für die Frage Q5 sowie ein maximaler Wert von 1,66 für die Frage Q12.

Die Ergebnisse für den Bodeneffekt reichten von 0 % bis 37,3 %, wobei Q12 die einzige Frage war, bei der das Ergebnis unter 30 % lag. Für den Deckeneffekt ergaben sich Werte zwischen 9,0 % und 77,8 %. Dieser trat häufiger auf als der Bodeneffekt.

Tabelle 7: Deskriptive Statistik des EOSQ-24-G mit Boden-und Deckeneffekt

Variabel	M	SD	Nicht beant- wortet (n)	Nicht beant- wotet (%)	Bod- enef- fekt (%)	Deck- enef- fekt (%)
Allg. Gesundheitszustand						
Q1	3,60	0,77	0		0	9,0
Q2	4,00	0,93	1	1,5	0	34,3
Pain						
Q3	3,90	0,85	0		0	22,4
Q4	3,96	0,82	0		0	28,4
Lungenfunktion						
Q5	4,71	0,67	0		0	77,6
Q6	4,19	1,05	1	1,5	3,0	49,3
Mobilität						
Q7	3,42	1,51	1	1,5	22,4	29,9
Körperfunktionen						
Q8	4,08	1,27	1	1,5	7,5	53,7
Q9	4,31	1,25	1	1,5	7,5	64,2
Q10	3,71	1,64	7	10,4	19,4	44,8
Alltagsleben						
Q11	3,23	1,65	3	4,5	26,9	31,3
Q12	2,71	1,66	2	3,0	37,3	25,4
Müdigkeit						
Q13	3,87	0,84	0		0	20,9
Q14	3,88	1,18	0		6,0	35,8
Emotionales Befinden						
Q15	4,04	0,99	1	1,5	3,0	40,3
Q16	3,58	0,91	2	3,0	1,5	20,9
Belastung						
Q17	3,40	1,03	0		4,5	16,4
Q18	3,65	1,20	0		6,0	35,8
Q19	3,25	1,19	1	1,5	6,0	16,4
Q20	3,31	1,25	2	3,0	6,0	22,4
Q21	4,06	0,87	1	1,5	0	32,8
Finanzielle Auswirkungen						
Q22	3,96	1,07	0		1,5	43,3
Zufriedenheit						
Q23	4,15	1,00	2	3,0	3,0	41,8
Q24	4,25	1,05	1	1,5	6,0	46,3

3.1.4 Validierung des KINDL®s

Der KINDL®-Fragebogens wurde bereits 2007 validiert und daher in der vorliegenden Studie keiner weiteren Analyse unterzogen. Es wurden insgesamt 41 Fragen (3,8 %) nicht beantwortet. Die Fragen Q21 und Q22 wurden viermal nicht beantwortet, die Fragen Q23 sowie Q24 wurden jeweils fünfmal nicht beantwortet.

Bei den restlichen Fragen wurden maximal zweimal keine Antworten vermerkt. Vier der Fragen (Q3, Q4, Q5 sowie Q17) wurden vollständig beantwortet

3.2 Patientenkollektiv

Für die Auswertung der Einflussfaktoren auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern, welche mit wachstumsfreundlichen Implantaten (MAGEC® oder VEPTR®) operiert wurden, wurden ausschließlich Fragebögen der Universitätsmedizin Göttingen verwendet. Das Kollektiv umfasste insgesamt 45 Patienten, von denen 19 weiblich und 26 männlich waren (Tabelle 8). Das Durchschnittsalter der Kinder bei Erhebung der Daten betrug 9,5 Jahre und lag bei Erstimplantation eines wachstumsfreundlichen Implantates zur Wirbelsäulenkorrektur bei durchschnittlich 5,6 Jahren.

In dem Patientenkollektiv wurden alle fünf Skoliose-Formen der *Early-Onset*-Skoliosen berücksichtigt, wobei der kleinste Anteil von der idiopathischen Form repräsentiert wurde ($n = 2$) und der größte Anteil des Kollektivs mit über 55 % von der neuromuskulären Skoliose ($n = 25$). In letzterer Gruppe fanden sich 12 (27 %) SMA Kinder.

Als Implantationstypen für wachstumsfreundliche Implantate hatten 25 Patienten MAGEC®- und 19 Patienten VEPTR®-System implantiert bekommen. Bei sechs Patienten war ein Implantatwechsel von VEPTR® zu MAGEC® am Zeitpunkt der Befragung erfolgt.

Die Therapiedauer mit wachstumsfreundlichen Implantaten bei Befragung betrug durchschnittlich 3,9 Jahre. 35 % der Patienten ($n = 16$) befanden sich noch unter 1000 Tage in Therapie, 8 % ($n = 4$) bereits über 3000 Tage.

Tabelle 8: Patientenkollektiv

Variabel	Wert
Anzahl an Patienten	45
weiblich	19
männlich	26
Alter der Patienten bei Datenerhebung	9,5 (4,9-17)
Alter der Patienten bei Implantation	5,6 (0,8-13)
Diagnose	
kongenital	11
idiopathisch	2
neuromuskulär	25
syndromal	7
Implantat	
VEPTR®	19
MAGEC®	20
VEPTR®→MAGEC®	6
Therapiedauer (Jahre)	3,9 (0,4-9,0)
Anzahl der Verlängerungen	10 (2-25)
Cobb-Winkel bei Diagnosestellung	68,7° (24°-130°)
Cobb-Winkel bei Datenerhebung	39,1° (3°-82°)
<i>Body-Mass-Index</i>	
Untergewicht	14
Normalgewicht	23
Übergewicht	8
Distanz zur Klinik (km)	247,2 (21-545)

VEPTR® = *vertical expandable prosthetic titanium rib*; MAGEC® = *magnetically controlled implant*

Die durchschnittliche Anzahl der Verlängerungen im gesamten Patientenkollektiv lag bei 10, mit einem Minimum von 2 und einem Maximum von 25 Verlängerungen. Dabei hatten insgesamt 21 Patienten über zehn Verlängerungen, zwei Patienten über 20 aufzuweisen. Letztere Patienten unterzogen sich einem Implantatwechsel. Konservativ mittels Magnet erfolgten 62,3 % (n = 288) und operativ 37,7 % (n = 174) der Verlängerungen.

Die durchschnittliche Therapiedauer bei Patienten mit Implantatwechsel lag bei 2185 Tagen (ca. 6 Jahre) mit einem Minimum von 1208 und einem Maximum von 3295 Tagen. Es wurden sechs bis 25 Verlängerungen durchgeführt (Mittelwert = 15), davon durchschnittlich vier mit operativer Intervention (min. = drei bis max. = sechs). Bei fast allen Patienten mit Implantatwechsel lag die Anzahl der Verlängerungen der MAGEC®-Implantate höher als die Anzahl der operativen Verlängerungen der VEPTR®-Stäbe. Nur ein Proband wies gleich viele Verlängerungen mit beiden Implantaten auf (n = 3).

Der Cobb-Winkel lag bei Diagnosestellung durchschnittlich bei 68,7°. Nach der Implantation der wachstumsfreundlichen Implantate konnte eine Verbesserung um 52 % auf durchschnittlich 33,4° beobachtet werden. Bei Erhebung der Fragebögen lag der Cobb-Winkel bei 39,1°, was einer Korrektur des Ausgangswinkels von 43 % entspricht.

Die Untersuchung des *Body-Mass-Index* ergab eine Verteilung in Untergewicht (31 %, n = 14), Normalgewicht (51 %, n = 23) und Übergewicht (18 %, n = 8).

Als durchschnittliche Distanz des Wohnortes zum Universitätsklinikum Göttingen ergab sich eine Strecke von 245,9 km. Die längste Distanz lag mit 545 km im Kreis München. Die kürzeste Distanz mit 21 km in Northeim. Zehn Probanden des Kollektivs wohnten in einem Radius von < 100 km vom Klinikum entfernt, bei sechs der Patienten waren es > 500 km.

3.3 Auswertung

3.3.1 Vergleich des EOSQ-24-G- und des KINDL®-Fragebogens

Der Vergleich des EOSQ-24-G mit dem KINDL® in Bezug auf die im Durchschnitt vergebene Gesamtpunktzahl in der Befragung zeigt sich in Abbildung 4. Der Durchschnitt der vergebenen Gesamtpunktzahlen im EOSQ-24-G betrug 65 Punkte, im KINDL® lag dieser Wert bei 76 Punkten. Im EOSQ-24-G ergab sich eine Spannbreite zwischen minimal 30 und maximal 95 Punkten. Im KINDL®-Fragebogen lag diese Spanne bei minimal 52 und maximal 97 Punkten. Somit wurde im KINDL®-Fragebogen durchschnittlich um 11 % positiver bewertet als im EOSQ-24-G. Mit einem $p < 0,001$ ist dieses Ergebnis als signifikant zu werten. Die Tendenzen der Fragebögen waren in der gesamten Untersuchung identisch. Die Bewertungen durch den KINDL® fielen jedoch stets positiver aus als durch den EOSQ-24-G.

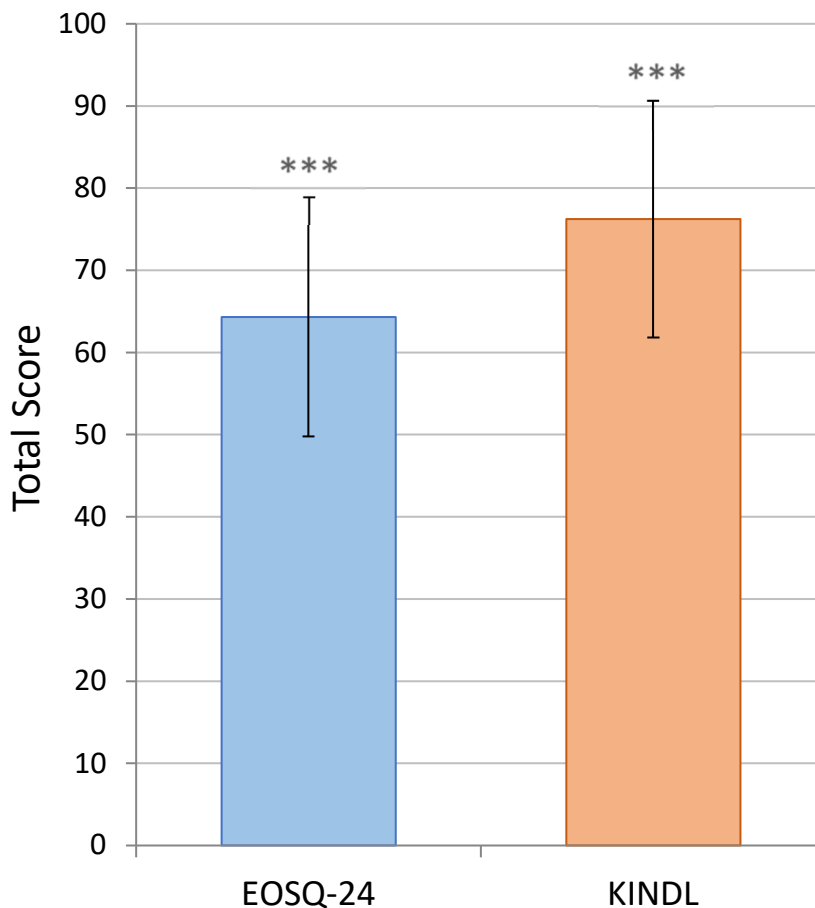


Abbildung 4: Verteilung des Total Scores in Bezug auf EOSQ-24-G und KINDL®

Aufgetragen ist der Total Score in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die zwei Fragebögen (EOSQ-24-G; KINDL®) auf der x-Achse. Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 % -Konfidenzintervall. *** entspricht $p < 0,001$. Die Signifikanzen beziehen sich auf den KINDL®-Fragebogen.

3.3.2 Einfluss des Alters bei Implantation auf die Lebensqualität

Das durchschnittliche Alter bei Implantation der wachstumsfreundlichen Stäbe betrug 5,6 Jahre. Es ergab sich eine Spannweite von 0,8 bis 13,1 Jahren. Beim jüngsten Patienten (0,8 Jahre) wurde die gesundheitsbezogene Lebensqualität mit 44 Punkten im EOSQ-24-G sowie mit 74 im KINDL® bewertet. Die Bewertung des ältesten Patienten bei Implantation (13,1 Jahre) wurde im EOSQ-24-G mit 59 und im KINDL® mit 74 Punkten errechnet. Die maximale Punktzahl von 95 bzw. 97 Punkten wurde bei einem Alter von 535 Tagen (EOSQ-24-G) sowie bei 1849 Tagen (KINDL®) verzeichnet. Die minimale Punktzahl von 30 bzw. 52 Punkten vergaben die Patienten im Alter von 2037 Tagen (EOSQ-24-G) sowie 1430 Tagen (KINDL®). Weder im EOSQ-24-G (Abb. 5A) noch im KINDL® (Abb. 5B) konnten Signifikanzen in der Gesamtbewertung in Zusammenhang auf das Alter der Patienten bei

Einsetzen der Wirbelsäulenimplantate festgestellt werden. Durch die breite Streuung der Werte ließ sich kein Einfluss des Alters auf die Bewertung der Lebensqualität erkennen.

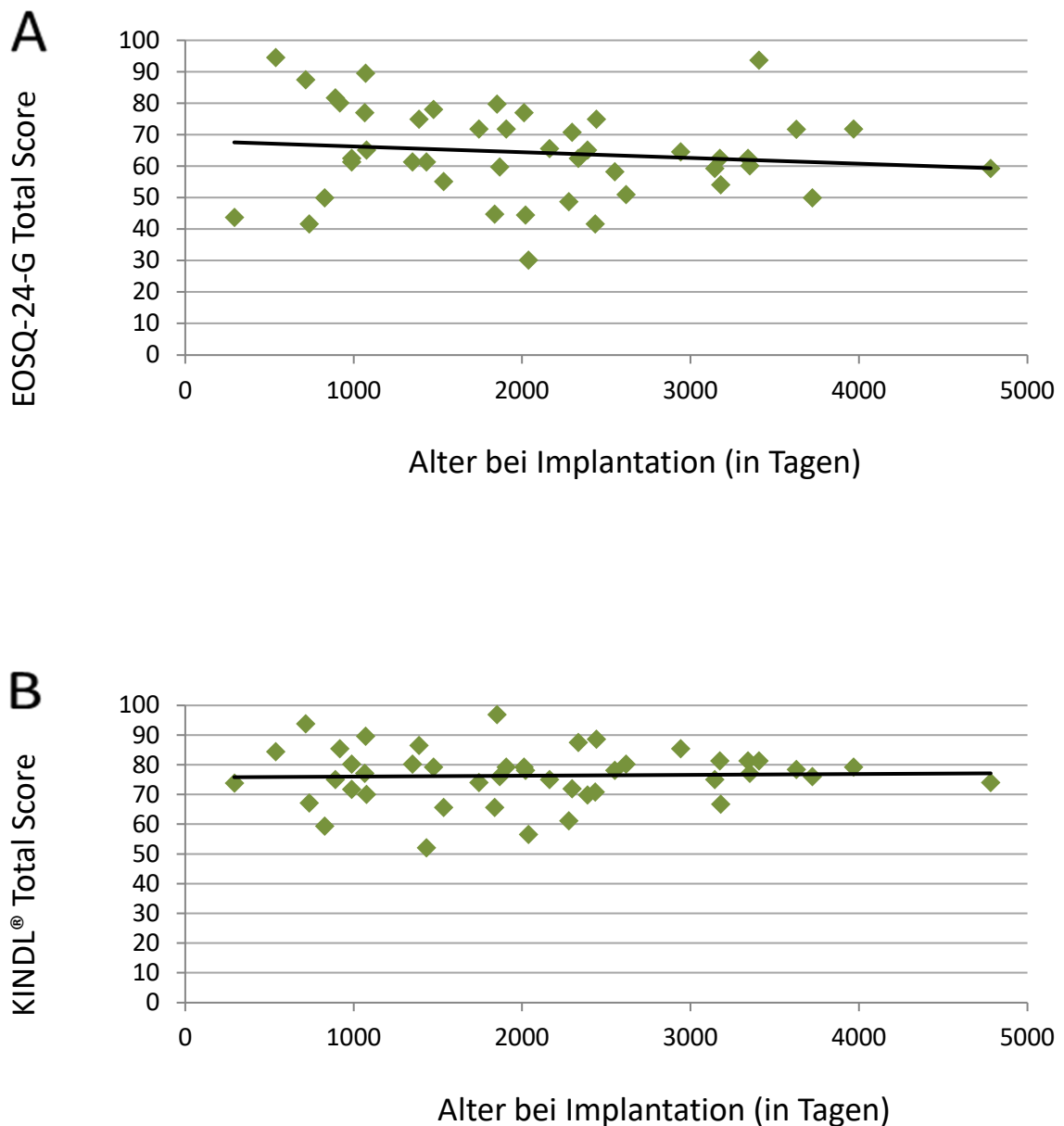


Abbildung 5: Gesamtpunktzahl in Bezug auf das Alter der Probanden bei Implantation

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen das Alter bei Implantation in Tagen.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen das Alter bei Implantation in Tagen.

Zur Überprüfung einer Abhängigkeit beider Variablen wurde eine Regressionsanalyse durchgeführt.

3.3.3 Einfluss des Geschlechts auf die Lebensqualität

Das Patientenkollektiv der Studie bestand aus 25 männlichen und 20 weiblichen Probanden.

Die Analyse des EOSQ-24-G (Abb. 6A) für die vergebene Gesamtpunktzahl der männlichen Patienten ergab eine Spannbreite von 30 bis 95 Punkten mit einem Mittelwert von 64 (± 16) Punkten. Für die weiblichen Probanden wurde ein Durchschnitt von 64 (± 14) Punkten sowie ein Minimum von 44 und ein Maximum von 88 Punkten errechnet.

Im KINDL® (Abb. 6B) lag der Mittelwert des männlichen Geschlechts bei 77 (± 9) Punkten mit einer Spanne zwischen 57 und 97 Punkten. Bei den weiblichen Studienteilnehmern wurden im Durchschnitt 76 (± 10) Punkte erreicht. Die Streuung lag zwischen 52 und 94 Punkten. Die Untersuchung ergab weder im EOSQ-24-G mit $p = 0.990$ noch im KINDL® mit $p = 0.641$ einen signifikanten Unterschied. Im Durchschnitt fiel die Bewertung durch den KINDL® bei den weiblichen Probanden um 12 % und bei den männlichen um 13 % höher aus als im EOSQ-24-G.

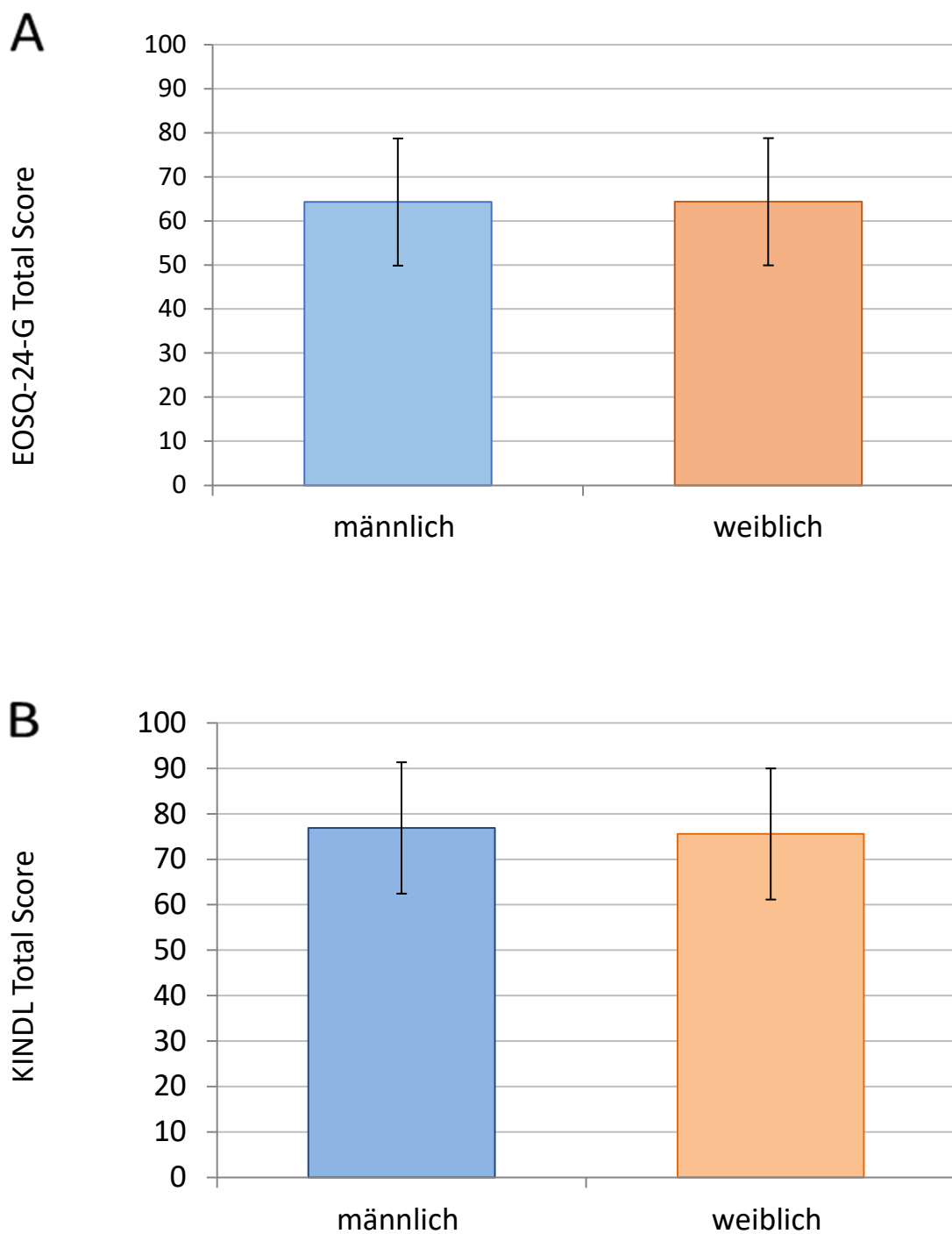


Abbildung 6: Gesamtpunktzahl in Bezug auf das Geschlecht des Kindes

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen das männliche (n = 25) sowie weibliche (n = 20) Geschlecht auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen das männliche (n = 25) sowie weibliche (n = 20) Geschlecht auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall.

3.3.4 Einfluss der Diagnose auf die Lebensqualität

In dem untersuchten Kollektiv ($n = 45$) hatten 25 Kinder (56 %) eine neuromuskuläre Skoliose, elf (24 %) eine kongenitale, sieben (16 %) eine syndromale und zwei Patienten (4 %) eine idiopathische Skoliose.

Bei Patienten mit einer kongenitalen Skoliose zeigte die gesundheitsbezogene Lebensqualität im EOSQ-24-G als auch im KINDL® die beste Bewertung. Im EOSQ-24-G lag der Mittelwert bei 73 (± 17) Punkten, im KINDL® bei 79 (± 11).

Beim Vorliegen einer idiopathischen Skoliose wurde die Lebensqualität mit durchschnittlich 72 (± 14) Punkten im EOSQ-24-G und mit 78 (± 4) Punkten im KINDL® bewertet.

Die bei 56 % der Probanden auftretende neuromuskuläre Skoliose erreichte einen Mittelwert von 63 (± 14) Punkten im EOSQ-24-G, was dem geringsten Wert entsprach. Es errechnete sich ein Unterschied von 10,5 % im Vergleich mit der am besten bewerteten kongenitalen Skoliose, sowie von 8,8 % (idiopathisch) und 3 % (syndromal). Im KINDL® ergab sich ein Mittelwert von 76 (± 9).

Ein Mittelwert von 66 (± 11) Punkten wurde bei der syndromalen Skoliose in der Analyse des EOSQ-24-G verzeichnet. Im KINDL® errechnete sich ein Durchschnittswert von 75 (± 8) Punkten, was die negativste Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität im KINDL® darstellte. In Bezug auf die Bewertung bei kongenitaler Skoliose lag ein Unterschied von 3,7 % vor. Der Unterschied zur idiopathischen Skoliose betrug 2,4 % sowie 0,5 % zur neuromuskulären Skoliose.

Bei allen Arten der Skoliose war eine positivere Bewertung des KINDL® zu verzeichnen. Im Durchschnitt lag der Total Score im KINDL® um 8,5 % höher als im EOSQ-24-G. Zwischen den einzelnen Diagnosen ließ sich jedoch kein signifikanter Unterschied in Bezug auf die Gesamtbewertung ermitteln, weder im EOSQ-24-G noch im KINDL®.

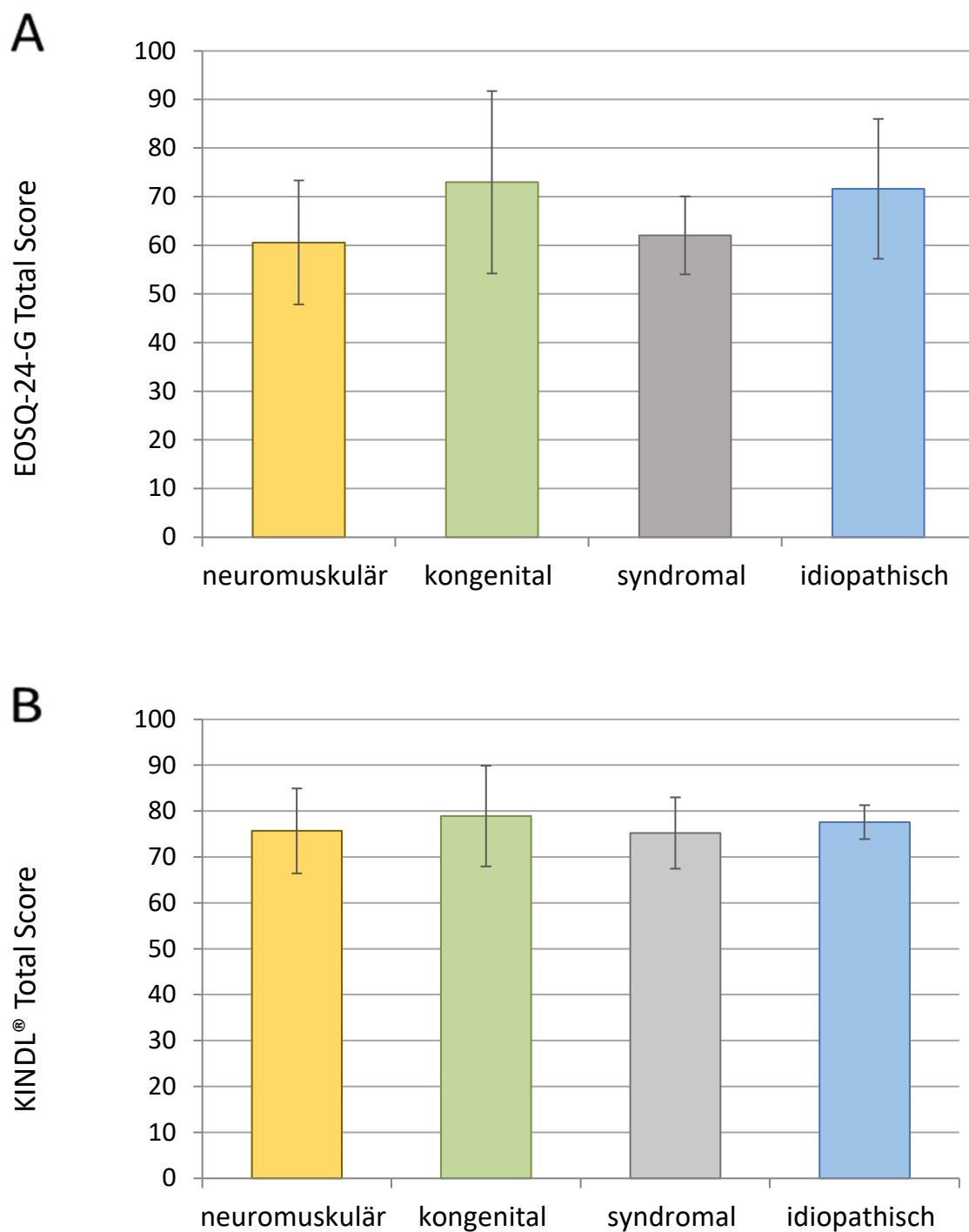


Abbildung 7: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die Diagnose der Patienten

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die jeweilige Diagnose auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®S in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die jeweilige Diagnose auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall.

3.3.5 Einfluss des Implantats und der nachfolgenden Operationen auf die Lebensqualität

In der vorliegenden Studie wurden alle Probanden mit einem wachstumsfreundlichen Implantat versorgt. Anhand der Fragebogenanalyse wurde der Vergleich dieser Implantate (MAGEC® und VEPTR®) und die damit verbundene konservative bzw. operative Therapie in Bezug auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität ermittelt.

In der VEPTR®-Gruppe erfolgten durchschnittlich 7,8 operative Verlängerungen (min. = 2; max. = 15). Die gesundheitsbezogene Lebensqualität bei zwei operativen Verlängerungen ergab 72 Punkte (EOSQ-24-G) sowie 79 Punkte (KINDL®). Der Totalscore bei der maximalen Anzahl an operativen Verlängerungen (n = 15) betrug 50 (EOSQ-24-G) und 59 (KINDL®). Das ergab einen prozentualen Unterschied von 12 % im EOSQ-24-G sowie von 20 % im KINDL®.

Die Verlängerungsanzahl der MAGEC®-Patienten lag im Mittel bei 10,5 (min. = 2; max. = 18) ohne Implantatwechsel. Bei dem Minimum von Verlängerungen mittels Magnet errechnete sich die gesundheitsbezogene Lebensqualität mit 63 Punkten (EOSQ-24-G) sowie mit 88 Punkten (KINDL®). Bei 18 Verlängerungen ergaben sich Werte von 49 (EOSQ-24-G) und 61 (KINDL®). Hier ließ sich ein Unterschied von 14 bzw. 27 % (EOSQ-24-G /KINDL®) erkennen.

Im EOSQ-24-G (Abbildung 8A) lag die durchschnittliche Gesamtpunktzahl aller MAGEC®-Patienten bei 62 (± 15). Ein Minimum ergab sich aus 30 Punkten sowie ein Maximum aus 90 Punkten. Für die Patienten mit den VEPTR®-Implantaten ließ sich ein Mittelwert von 68 (± 14) errechnen. Hier variierten die Werte zwischen 42 und 95 Punkten. Die gesundheitsbezogene Lebensqualität wurde bei Patienten mit VEPTR®-Stäben und somit operativen Verlängerungen im EOSQ-24-G mit 6 % besser bewertet als das MAGEC®-Implantat.

Im KINDL®-Fragebogen (Abbildung 8B) ergab sich ein durchschnittlicher Wert von 76 für die Gesamtpunktzahl bei beiden Implantattypen. Die Standardabweichung für das MAGEC®-Implantat betrug ± 11 Punkte, für die VEPTR®-Stäbe ± 7 Punkte. Die Werte der MAGEC®-Patienten variierten zwischen 52 und 97 Punkten. Bei den VEPTR®-Patienten lag die Spanne zwischen 59 und 89 Punkten. Es fand sich kein Unterschied in der Bewertung der Implantattypen und Therapieform in der Auswertung des KINDL®-Fragebogens.

Im Vergleich der Fragebögen wurde im KINDL® das MAGEC®-Implantat um 14 % besser und die VEPTR®-Stäbe um 8 % besser bewertet als im EOSQ-24-G. Ein signifikanter Unterschied sowohl in der Bewertung der Implantate als auch in Bezug auf die konservative oder operative Therapie fand sich weder beim EOSQ-24-G ($p = 0.188$) noch beim KINDL® ($p = 0.979$).

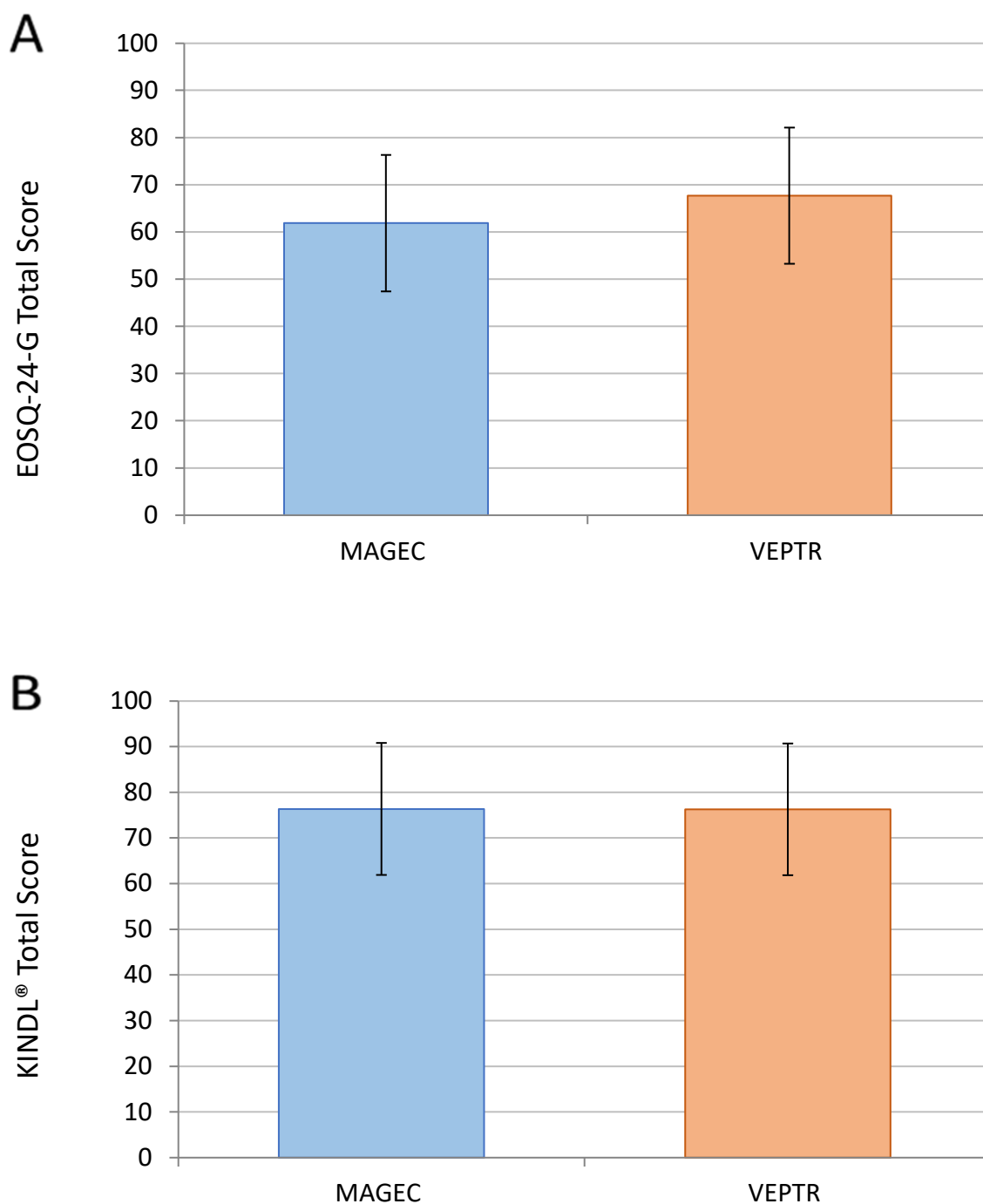


Abbildung 8: Vergleich der Gesamtpunktzahl zwischen MAGEC® und VEPTR®

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die Implantate MAGEC® und VEPTR® auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die Implantate MAGEC® und VEPTR® auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall

3.3.6 Einfluss der Therapiedauer auf die Lebensqualität

Die kürzeste Therapiedauer bei Abgabe der Fragebögen lag bei 144 Tagen (0,4 Jahren). Hier ergaben sich 63 Punkte im EOSQ-24-G, sowie 88 Punkte im KINDL®. Die längste Therapiedauer betrug 3295 Tage (9,0 Jahre). Die gesundheitsbezogene Lebensqualität wurde mit 80 Punkten (EOSQ-24-G) bzw. 85 Punkten (KINDL®) bewertet.

Im EOSQ-24-G Fragebogen trat die geringste Punktzahl von 30 Punkten bei 2405 Tagen (6,5 Jahre) Therapie auf, die höchste Punktzahl von 95 Punkten bei 3076 Tagen (8,4 Jahre).

Im KINDL® wurde das Maximum von 97 Punkten bei 1656 Tagen (4,5 Jahre) Therapie verzeichnet, das Minimum von 52 Punkten bei 1828 Tagen (5 Jahre).

Im Durchschnitt befanden sich die Probanden 1404 Tage (3,8 Jahre) in Behandlung.

Auch hier ergab sich eine breite Streuung der Werte. Durch die Regressionsanalyse zeigte sich keine klare Tendenz. Eine kürzere Therapiedauer ging nicht mit einer besseren Bewertung einher.

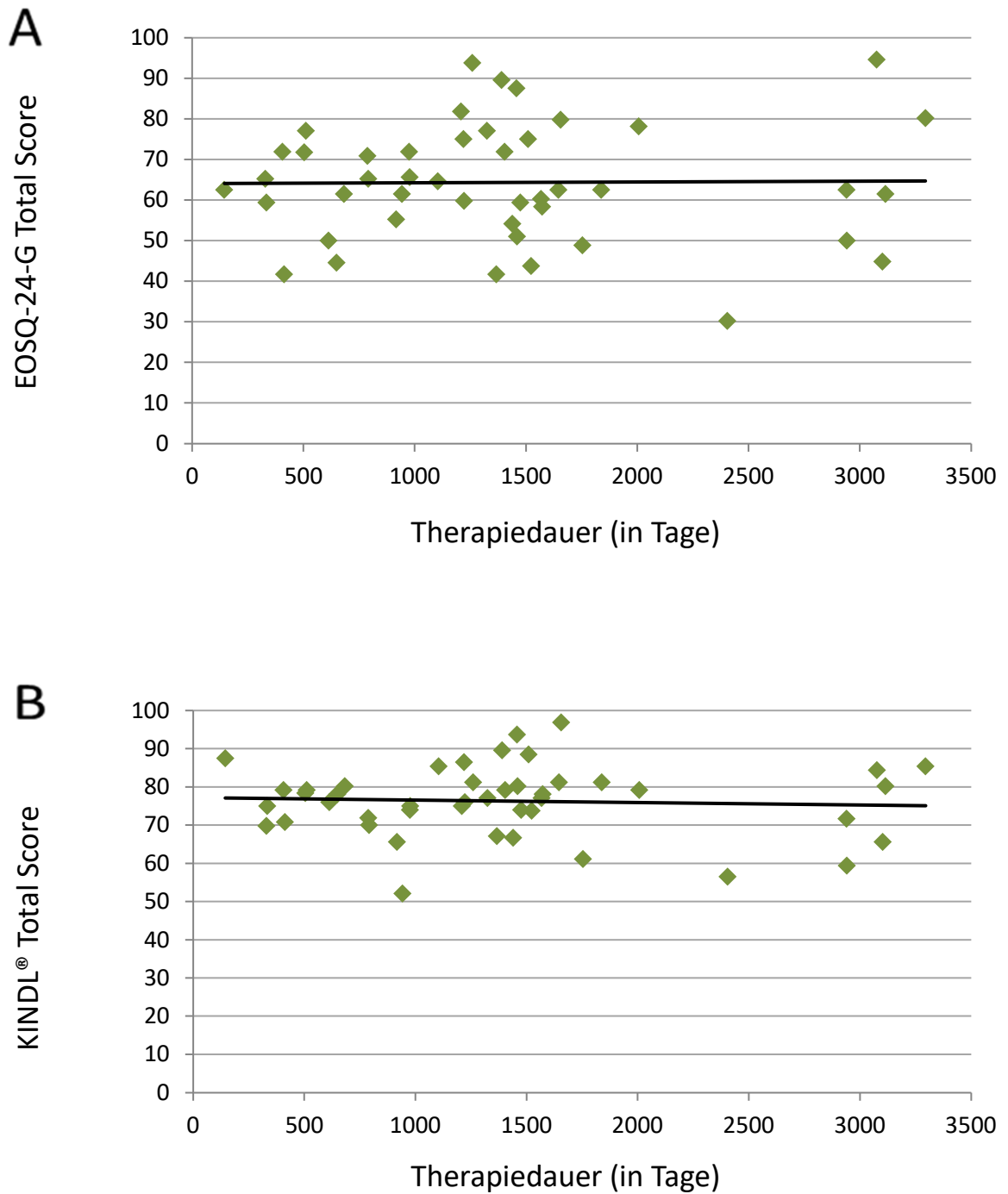


Abbildung 9: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die Therapiedauer

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) gegen die Therapiedauer in Tagen.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) gegen die Therapiedauer in Tagen.

Zur Überprüfung einer Abhängigkeit beider Variablen wurde eine Regressionsanalyse durchgeführt.

3.3.7 Einfluss des Cobb-Winkels bei Datenerhebung auf die Lebensqualität

Der kleinste gemessene Cobb-Winkel betrug 3° zum Zeitpunkt der Befragung. Im EOSQ-24-G (Abbildung 10A) wurde hier ein Total Score von 80 Punkten, im KINDL® (Abbildung 10B) von 97 erreicht. 97 Punkte stellten außerdem das Maximum des im KINDL® erreichten Total Scores dar. Der Unterschied zwischen EOSQ-24-G und KINDL® lag hier bei 17 %.

Der größte Cobb-Winkel lag bei 82° , die errechnete Punktzahl hierzu bei 59 Punkten im EOSQ-24-G sowie bei 75 Punkten im KINDL®. Dieses Ergebnis ergab einen Unterschied von 16 %.

Bei der maximalen vergebenen Gesamtpunktzahl im EOSQ-24-G (95) wurde ein Cobb-Winkel von 37° verzeichnet, bei der minimal vergebenen Punktzahl (30) ein Cobb-Winkel von 39° . Das Minimum von 52 Punkten im KINDL® hatte ein Patient mit einem Cobb-Winkel von 50° .

Insgesamt zeigten sich bei beiden Testen keine signifikanten Abhängigkeiten im Zusammenhang mit dem Skoliosegrad - gemessen als Cobb-Winkel zum Zeitpunkt der Erhebung (Abb. 10A/10B).

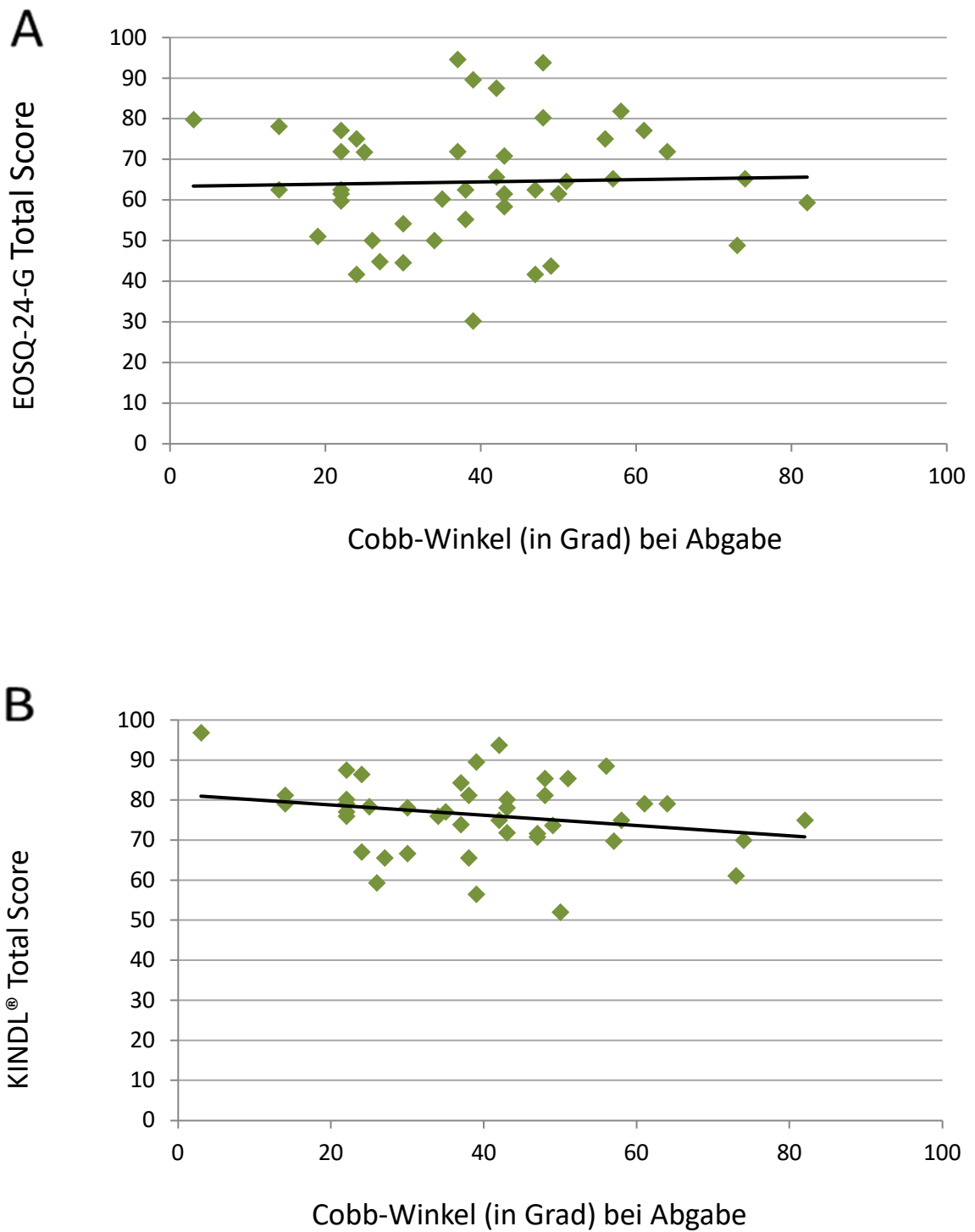


Abbildung 10: Gesamtpunktzahl in Bezug auf den Cobb-Winkel bei Abgabe

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) gegen den Cobb-Winkel bei Abgabe in Grad.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) gegen den Cobb-Winkel bei Abgabe in Grad.

Zur Überprüfung einer Abhängigkeit beider Variablen wurde eine Regressionsanalyse durchgeführt.

3.3.8 Einfluss des Cobb-Winkels bei Primäroperation eines wachstumsfreundlichen Implantates auf die Lebensqualität

Auch bei Evaluation des Skoliosegrades anhand des Cobb-Winkels zum Zeitpunkt der Diagnosestellung variierten die Werte so stark, dass sich kein valider Zusammenhang zwischen dem Cobb-Winkel bei Stellung der Diagnose und der Gesamtbewertung in den Fragebögen erkennen ließ.

Bei dem minimalsten Cobb-Winkel zum Zeitpunkt der Diagnose von 24° lag die Gesamtpunktzahl für die gesundheitsbezogene Lebensqualität bei 63 Punkten im EOSQ-24-G (Abbildung 11A). Der Total Score im KINDL® wurde bei einem Cobb-Winkel von 24° mit 81 Punkten angegeben. Der Unterschied der beiden Fragebögen betrug 18 %. Für den maximal gemessenen Wert von 130° lag der Wert bei 59 (EOSQ-24-G) bzw. bei 75 (KINDL®), was einen Unterschied von 16 % ausmachte.

Bei dem Maximum der vergebenen Punkte im EOSQ-24-G (95) lag ein Cobb-Winkel von 41° bei Diagnosestellung vor, bei dem Minimum (30) der vergebenen Punkte ein Cobb-Winkel von 62° .

Im KINDL® errechnete sich bei einem Cobb-Winkel von 46° das Maximum des Total Scores (97 Punkte), sowie bei einem Cobb-Winkel von 54° das Minimum (52 Punkte).

Durch die Regressionsanalyse erscheint eine fast waagerechte Regressionsgerade in beiden Abbildungen, was auf keinen signifikanten Unterschied in der gesundheitsbezogenen Lebensqualität in Bezug auf den Cobb-Winkel beim Einbau eines wachstumsfreundlichen Implantats hinweist.

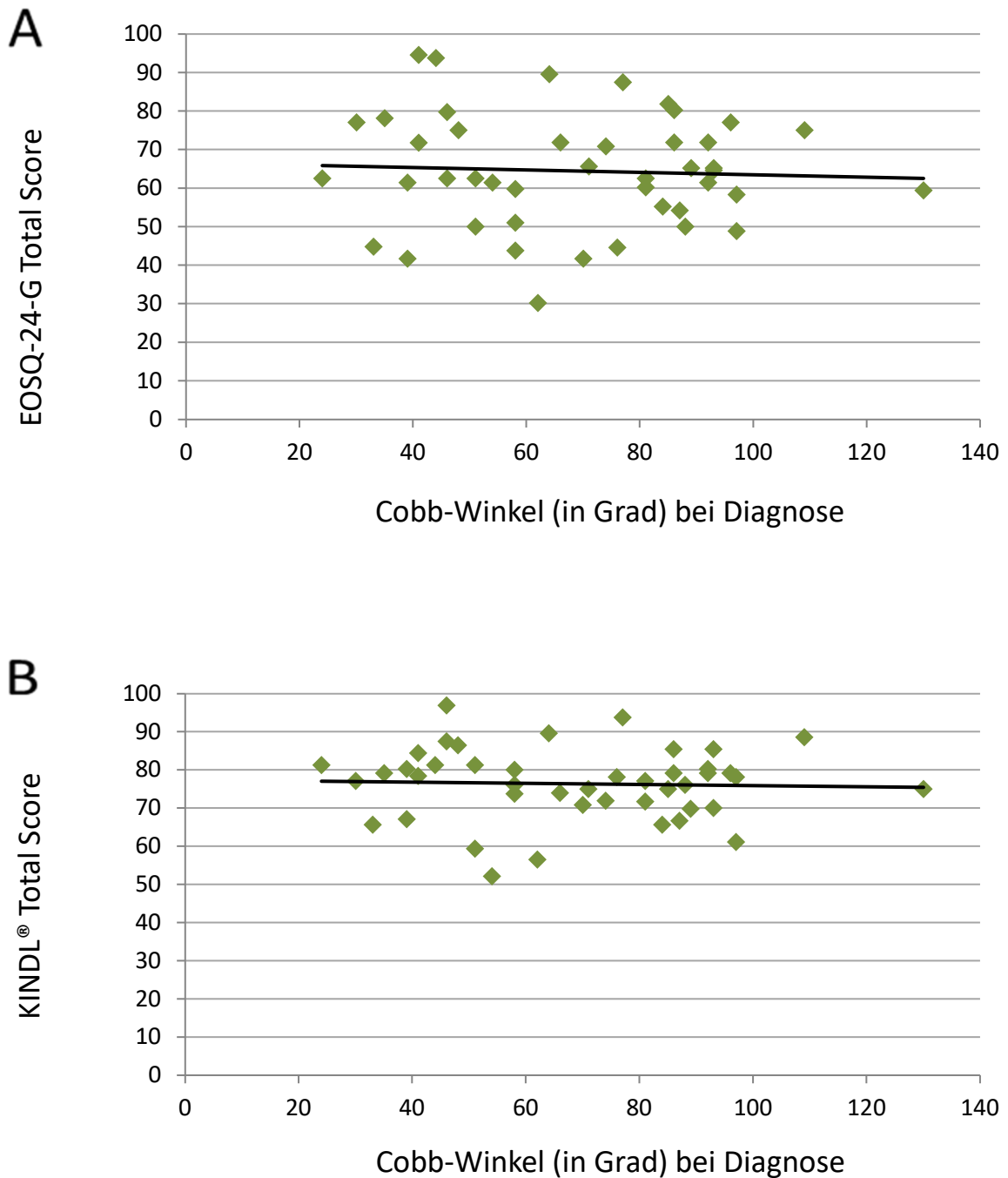


Abbildung 11: Gesamtpunktzahl in Bezug auf den Cobb-Winkel beim Einbau eines wachstumsfreundlichen Implantats

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) gegen den Cobb-Winkel bei Diagnose in Grad.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) gegen den Cobb-Winkel bei Diagnose in Grad.

Zur Überprüfung einer Abhängigkeit beider Variablen wurde eine Regressionsanalyse durchgeführt.

3.3.9 Einfluss der Verbesserung der Skoliose auf die Lebensqualität

Im Durchschnitt gelang durch die Implantat-Therapie eine Verbesserung des Cobb-Winkels um 43 %.

Bei der maximalen Verbesserung von 93 % wurde die gesundheitsbezogene Lebensqualität im EOSQ-24-G mit 80 Punkten bewertet bei der minimalsten Verbesserung von 7 % lag dieser Wert bei 61 Punkten (Abbildung 12A). Im KINDL® errechneten sich 67 Punkte bei der maximalen Verbesserung (93 %) sowie 52 Punkte bei der geringsten Verbesserung (Abbildung 12B). In beiden Extremen lag die Bewertung im EOSQ-24-G um 13 % bzw. 15 % höher. Im Gesamtkollektiv zeigte sich im Durchschnitt erneut die positivere Bewertung vom EOSQ-24-G im Vergleich zum KINDL® Test.

Im EOSQ-24-G hatte der Proband mit dem höchsten Total Score (95 Punkte) eine relative Verbesserung von 9,6 % aufzuweisen, der Proband mit dem niedrigsten Total Score (30) lag bei einer Verbesserung von 37 % (Abbildung 12A).

Im KINDL® wurde der höchsten Total Score (97 Punkte) bei einer relativen Verbesserung von 93% gemessen, der Proband mit dem niedrigsten Total Score (52) lag bei einer Verbesserung von 7,4 % (Abbildung 12B). Im Gegensatz zum EOSQ-24-G zeigte sich in der Graphik des KINDL®-Tests eine nicht signifikante Tendenz, dass je stärker die relative Verbesserung war, umso positivere Werte zu finden waren.

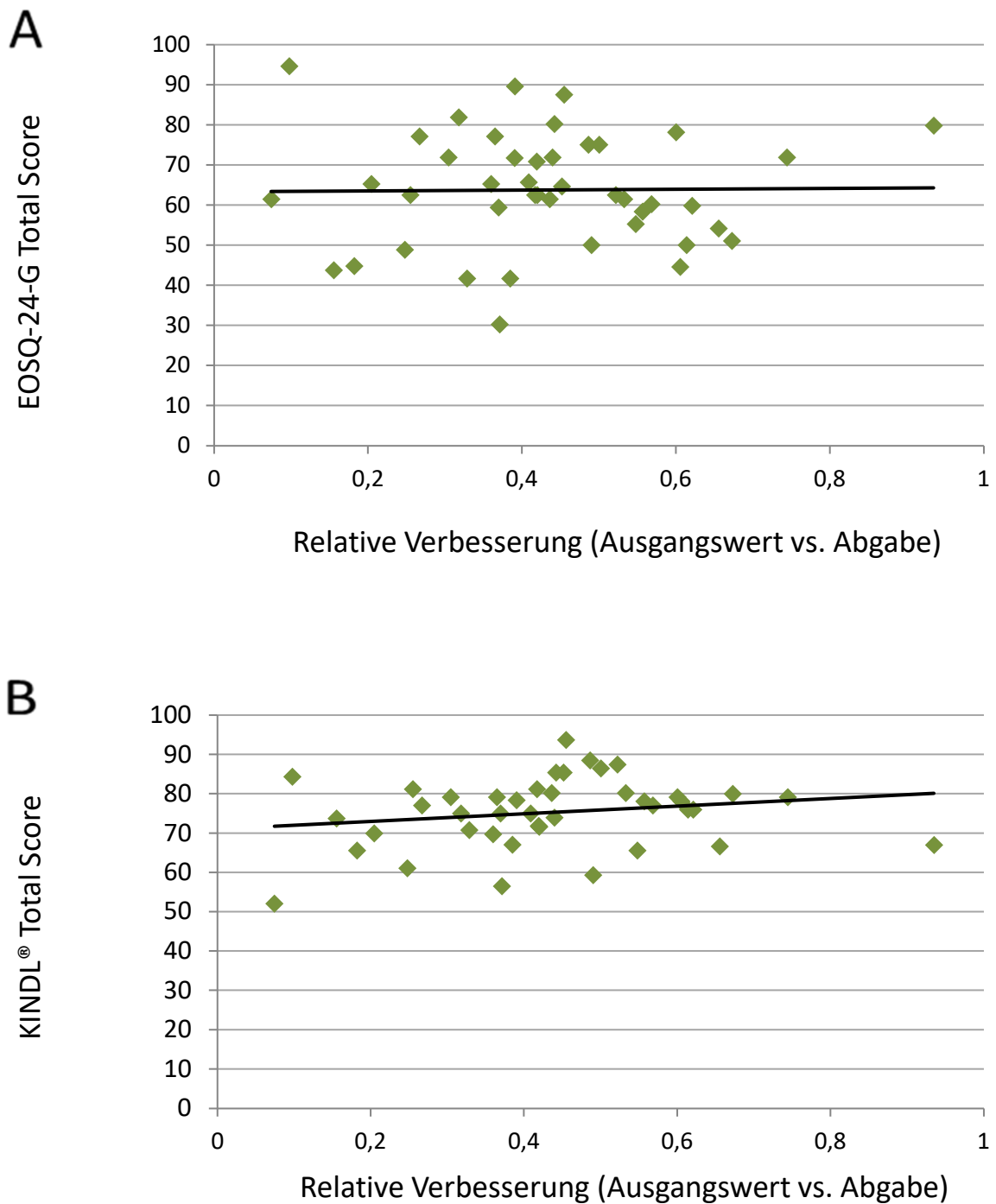


Abbildung 12: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die relative Verbesserung der Krümmung im. Im Vergleich steht der Cobb-Winkel bei Abgabe des Fragebogens zu dem Cobb-Winkel bei Diagnosestellung

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) gegen die relative Verbesserung.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) gegen die relative Verbesserung.

Zur Überprüfung einer Abhängigkeit beider Variablen wurde eine Regressionsanalyse durchgeführt.

3.3.10 Einfluss des *Body-Mass-Index* auf die Lebensqualität

Durch die Errechnung des altersbezogenen *Body-Mass-Index* wurden 31 % der Patienten ($n = 14$) als untergewichtig, 51 % ($n = 23$) als normalgewichtig und 18 % ($n = 8$) als übergewichtig klassifiziert. Die untergewichtigen Patienten gaben die gesundheitsbezogene Lebensqualität im EOQS-24-G durchschnittlich mit 59 (± 17) Punkten an (Abbildung 13A). Im KINDL®-Fragebogen wurden in dieser Kategorie 75 (± 8) Punkte verteilt, 15,5 % mehr als im EOSQ-24-G (Abbildung 13B). Im Durchschnitt vergaben die Kinder aus dieser Kategorie am wenigsten Punkte.

Der Mittelwert bei normalgewichtigen Probanden wurde mit 67 (± 13) Punkten (EOSQ-24-G) bzw. 76 (± 10) Punkten (KINDL®) berechnet. Im Vergleich zu den untergewichtigen Patienten ist das eine 7,1 %ige Steigung im EOSQ-24-G sowie um 1 % im KINDL®. Das Ergebnis des KINDL® Tests im Vergleich zum EOSQ-24-G lag 10 % höher.

Mit 68 (± 12) Punkten im EOSQ-24-G sowie 78 (± 11) Punkten im KINDL®-Fragebogen bewertete die Gruppe der übergewichtigen Patienten die gesundheitsbezogene Lebensqualität am besten. Es ergab sich ein Unterschied von 8,9 % (EOSQ-24-G) bzw. 3 % (KINDL®) zur Gruppe der untergewichtigen Kinder. Die Bewertung im KINDL® lag 10 % höher als im EOSQ-24-G. Trotz einer erkennbaren Tendenz in beiden Fragebögen zeigte sich kein signifikanter Unterschied bei der Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität in Bezug auf den BMI des Kindes ($p = 0,196$ bzw. $p = 0,643$).

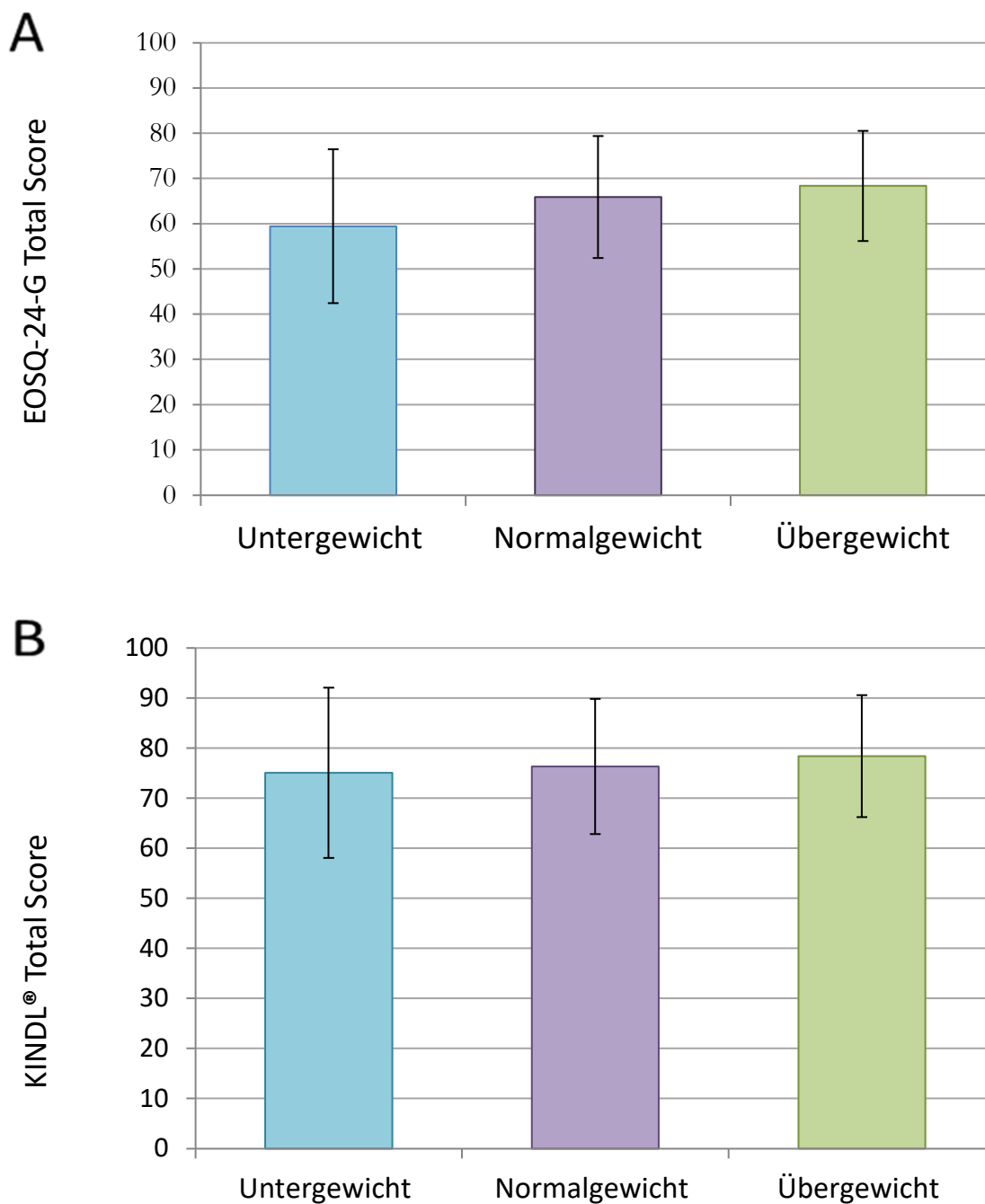


Abbildung 13: Vergleich der Gesamtpunktzahl in Bezug auf den BMI des Kindes

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen den altersangepassten BMI auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen den altersangepassten BMI auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall.

3.3.11 Einfluss der Wegstrecke zur Klinik auf die Lebensqualität

Die Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität in Bezug auf die Distanz zur behandelnden Klinik zeigte keine signifikanten Abhängigkeiten. Die Entfernung des Wohnorts der Patienten zur Klinik lag zwischen 21 km und 545 km.

Bei der geringsten Distanz von 21 km wurde die gesundheitsbezogene Lebensqualität im EOSQ-24-G mit dem Wert 94 bewertet (Abbildung 14A). Im KINDL® lag die Bewertung dieser Distanz bei 81 Punkten (Abbildung 14B). Werte von 90 Punkten (EOSQ-24-G) sowie 90 Punkten (KINDL®) wurden bei 545 km berechnet. Zwischen den beiden Extremen lag somit ein Unterschied von 4 % (EOSQ-24-G) bzw. 8,3 % (KINDL®).

Im EOSQ-24-G lag beim Minimum der vergebenen Punkte (30) eine Distanz von 81 km vor, beim Maximum (95) eine Distanz von 399 km.

Im KINDL® wurde bei einer Distanz von 379 km das Minimum sowie bei einer Distanz von 522 km das Maximum des Total Scores festgestellt.

Bei Betrachtung der Regressionsgeraden (Abb. 14A/B) ist durch die breite Streuung der Werte kein signifikanter Trend der Ergebnisse zu erkennen. Neben der Gesamtpunktzahl des Fragebogens und somit der allgemeinen Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität wurden auch weitere Faktoren mit der Distanz zur Klinik korreliert. Dabei fand sich sowohl bei der Elternbelastung als auch bei der finanziellen Belastung keine Relation zur Distanz des Wohnortes zum behandelnden Klinikum.

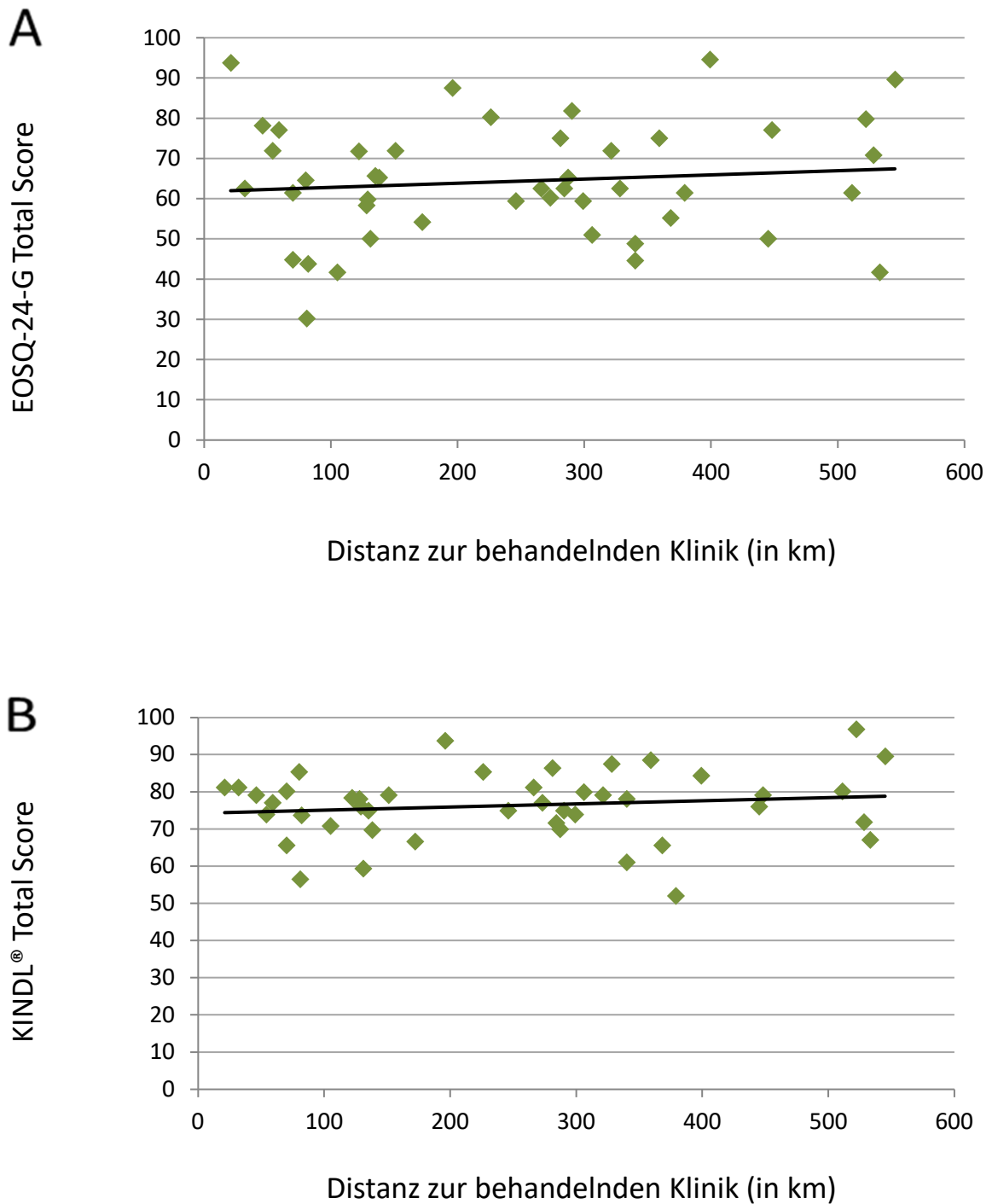


Abbildung 14: Bezug der Gesamtpunktzahl auf die Distanz zur behandelnden Klinik

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) gegen die Distanz zur Klinik in Kilometern.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) gegen die Distanz zur Klinik in Kilometern.

Zur Überprüfung einer Abhängigkeit beider Variablen wurde eine Regressionsanalyse durchgeführt.

3.3.12 Einfluss von Komplikationen auf die Lebensqualität

Die Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität wurde auf eine Abhängigkeit in Bezug auf entstandene Komplikationen untersucht. Bei 22 Kindern (49 %) war es unter der Therapie im Verlauf der Jahre zu Komplikationen gekommen.

Die im Durchschnitt vergebene Punktzahl ohne das Vorkommen von Komplikationen lag im EOSQ-24-G bei 69 (± 14) Punkten (Abbildung 15A). Im KINDL®-Fragebogen (Abbildung 15B) wurden durchschnittlich 78 (± 7) Punkte ohne das Auftreten von Komplikationen vergeben, 9 % mehr als im EOSQ-24-G.

Der Mittelwert bei Auftreten von Komplikationen berechnete sich mit 63 (± 15) Punkten (EOSQ-24-G) sowie 74 (± 10) Punkten (KINDL®). Es zeigte sich ein Abfall von 6 % (EOSQ-24-G) bzw. 4 % (KINDL®) in der Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität beim Auftreten von Komplikationen. Dieser Unterschied war signifikant ($p = 0,037$ EOSQ-24-G und $p = 0,038$ KINDL®). Somit lässt sich die Aussage treffen, dass durch das Vorhandensein von einer Komplikation in der Behandlung der Skoliosen die gesundheitsbezogene Lebensqualität schlechter bewertet wurde als ohne das Vorkommen von Komplikationen.

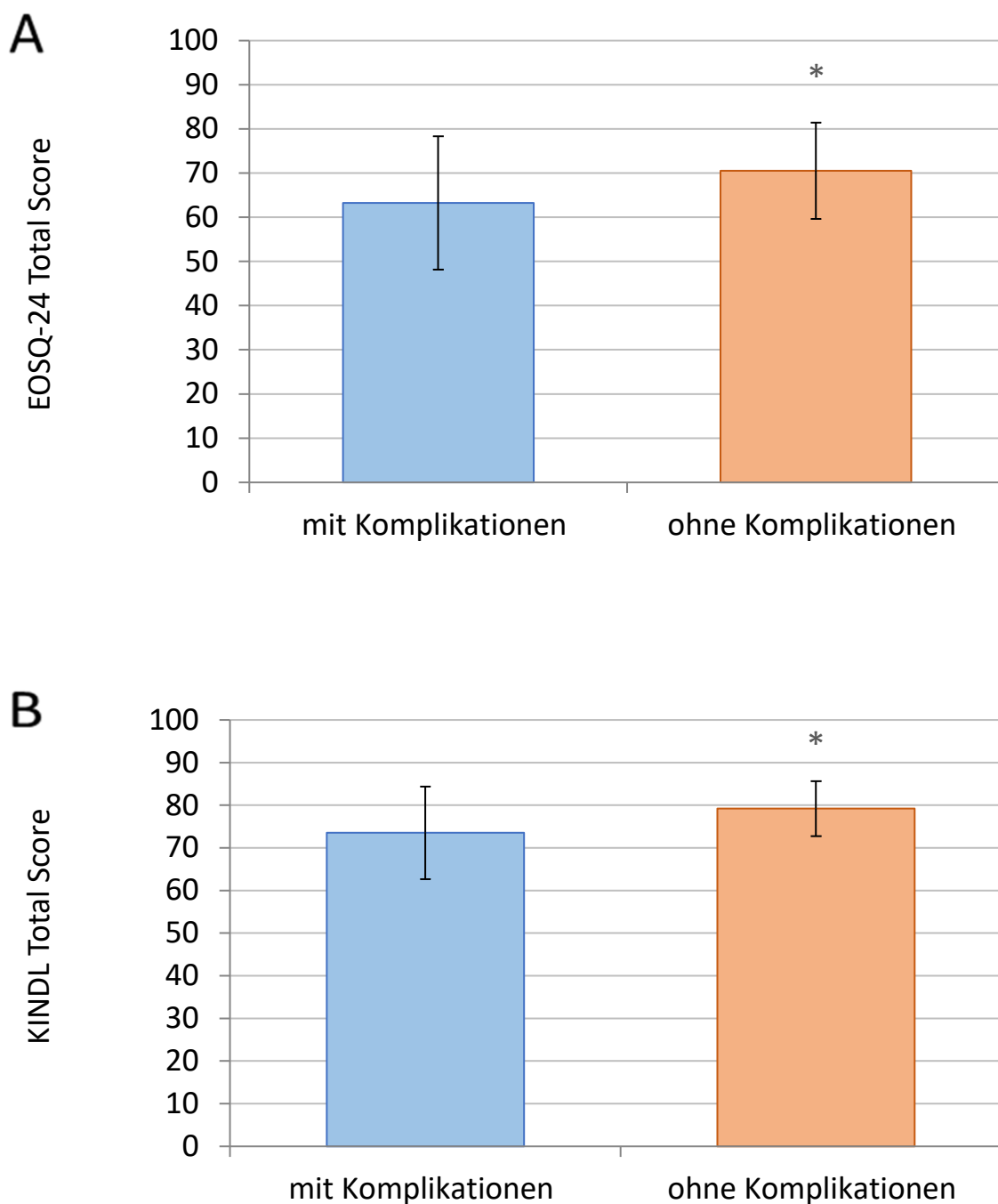


Abbildung 15: Gesamtpunktzahl in Bezug auf das Vorkommen von Komplikationen sowie den Verlauf ohne Komplikationen, mit Komplikationen n = 23, ohne Komplikationen n = 23

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen den Verlauf mit und ohne Komplikationen auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen den Verlauf mit und ohne Komplikationen auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall. * entspricht $p < 0,05$. Die Signifikanzen beziehen sich auf die Bewertung ohne Komplikationen.

3.3.12.1 Einfluss von Komplikationen auf die Elternbelastung

Der Einfluss von Komplikationen auf die Belastungssituation der Eltern wurde in den Fragen Q17-21 untersucht (Abb16A/B). Hier zeigte sich keine Signifikanz im EOSQ-24-G ($p = 0,110$). In der Auswertung des KINDL®-Fragebogens ergab sich ein Signifikanzwert ($p = 0,022$). Damit wurde im KINDL® die Aussage unterstützt, dass durch das Auftreten von Komplikationen in der Behandlung des Kindes die Belastung der Eltern steigt.

Durchschnittlich wurden in Bezug auf die Elternbelastung ohne das Auftreten von Komplikationen 64 (± 21) Punkte (EOSQ-24-G) bzw. 77 (± 9) Punkte (KINDL®) vergeben. Hier lag ein Unterschied von 13% in der Bewertung vor. Beim Auftreten von Komplikationen lag der Mittelwert bei 54 (± 22) Punkten (EOSQ-24-G) bzw. 65 (± 23) Punkten (KINDL®), was einer Abnahme von 10 % bzw. 12 % entspricht.

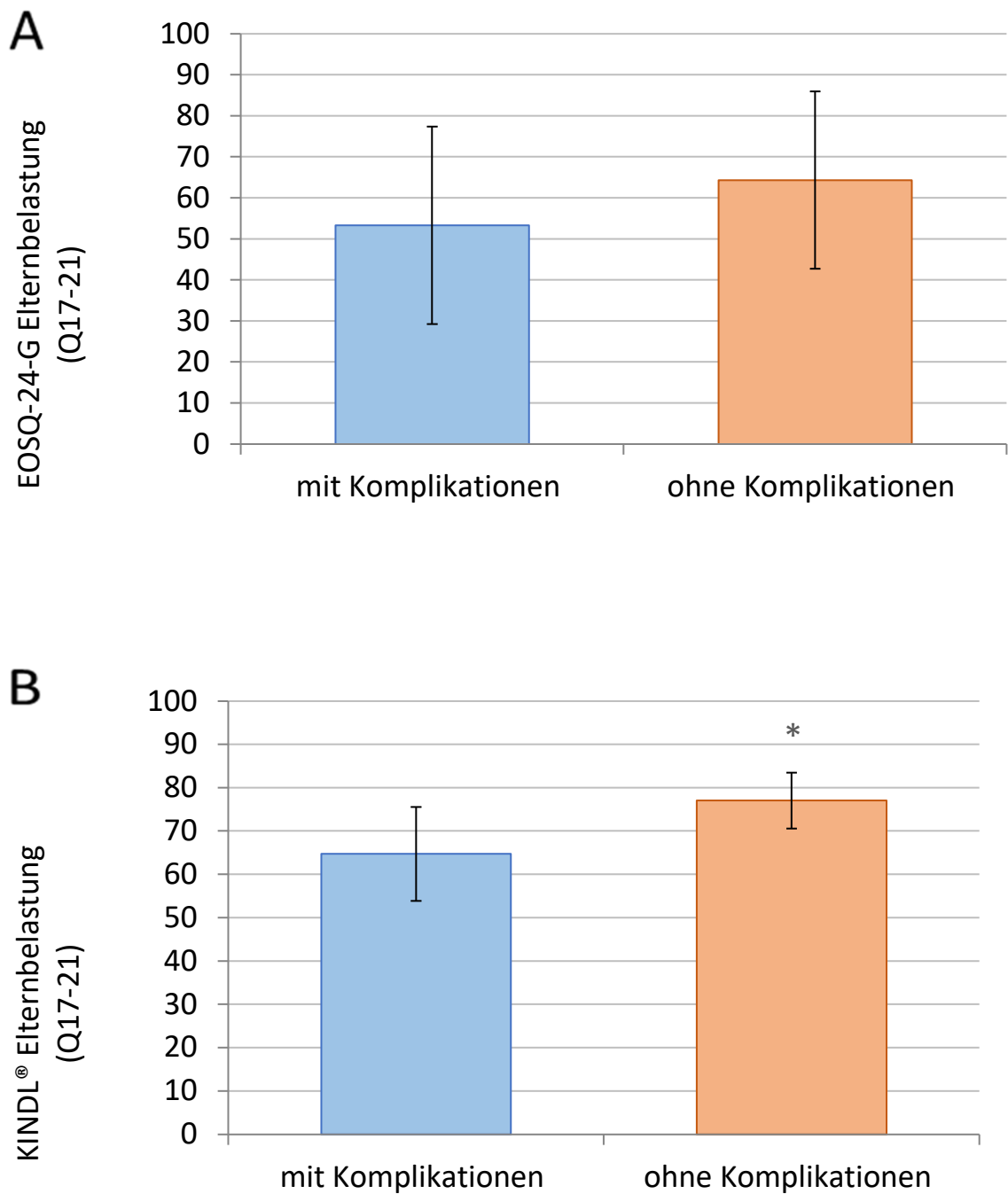


Abbildung 16: Bewertung der Elternbelastung (Q17-Q21) in Bezug auf das Vorkommen von Komplikationen und den Verlauf ohne Komplikationen, mit Komplikationen n = 23, ohne Komplikationen n = 23

A: Aufgetragen ist die Elternbelastung des EOSQ-24-G Frage Q17-Q21, in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen den Verlauf mit und ohne Komplikationen auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist die Elternbelastung des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen den Verlauf mit und ohne Komplikationen auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall. * entspricht $p < 0,05$. Die Signifikanzen beziehen sich auf die Bewertung ohne Komplikationen.

3.3.13 Einfluss der Gehfähigkeit auf die Lebensqualität

Die Studie schloss 16 gehfähige Probanden und 29 nicht gehfähige Probanden ein.

Der durchschnittliche Wert der gehfähigen Kinder lag im EOSQ-24-G bei 74 (± 14) Punkten (Abbildung 17A). Der Total Score bei nicht gehfähigen Kindern wurde mit 60 (± 12) Punkten errechnet. Das ist ein Verlust von 14 % in der Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität, bei Probanden, die nicht in der Lage waren, zu gehen. Dieser Unterschied war signifikant ($p = 0,002$). Damit hatten gehfähige Kinder eine signifikant erhöhte Lebensqualität im Vergleich zu Kindern im Rollstuhl. Im KINDL®-Fragebogen wurde bei gehfähigen Probanden ein Total Score von 79 (± 10) Punkten erreicht. Bei den nicht gehfähigen Kindern lag dieser bei 75 (± 9) Punkten (Abbildung 17B), 4 % unter dem Wert der Gehfähigen ohne Signifikanz ($p = 0,143$).

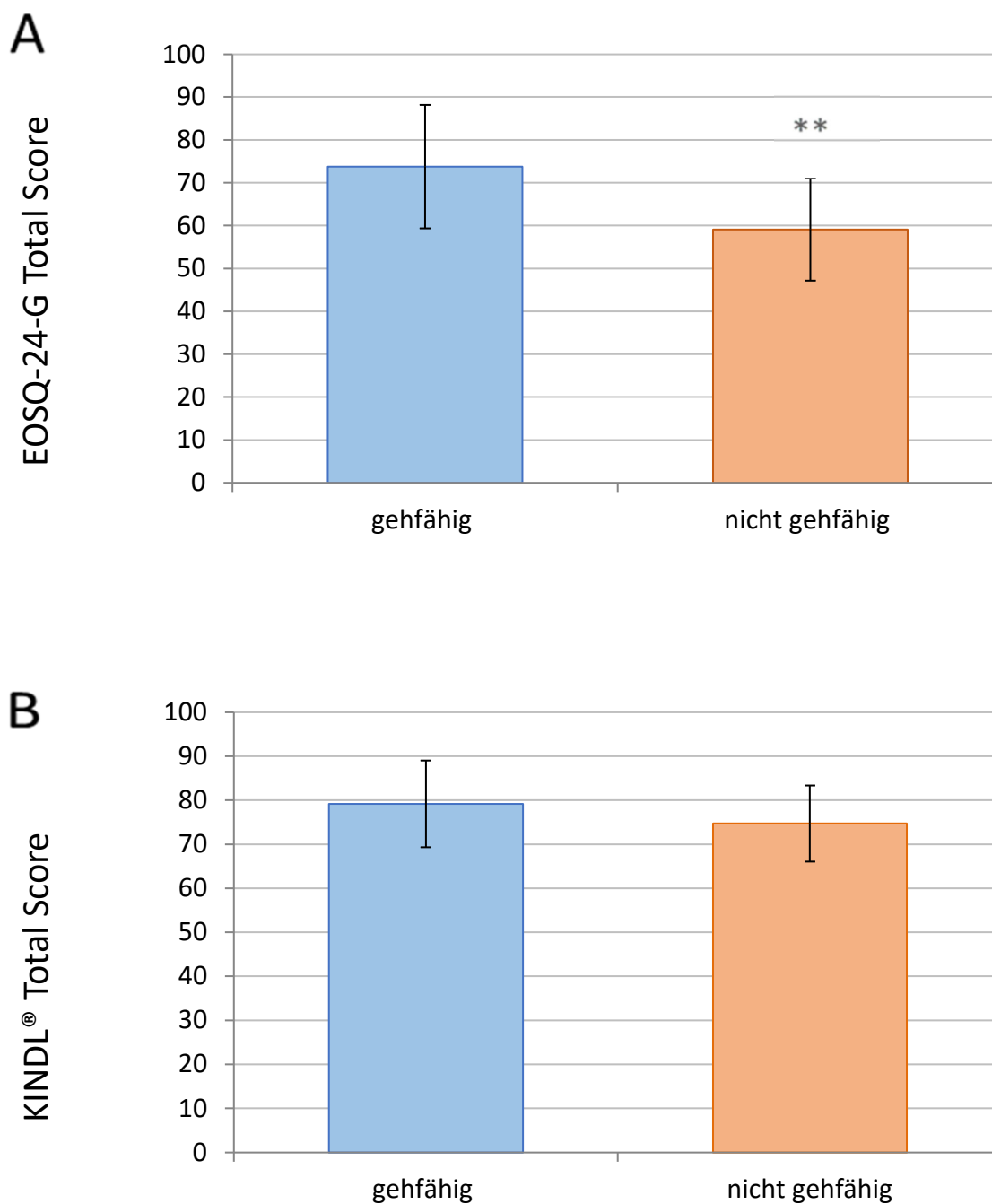


Abbildung 17: Gesamtpunktzahl in Bezug auf die Gehfähigkeit der Patienten, gruppiert nach gefähig (n = 16) und nicht gefähig (n = 29)

A: Aufgetragen ist der Total Score des EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die Gehfähigkeit der Probanden auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist der Total Score des KINDL®s in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die Gehfähigkeit der Probanden auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall. ** entspricht $p > 0.01$. Die Signifikanzen beziehen sich auf die Bewertung der nicht gefähigen Kinder.

3.3.13.1 Einfluss der Gehfähigkeit auf die Elternbelastung

Die Gehfähigkeit der Kinder wurde ebenfalls mit den Werten verglichen, die sich auf die Belastung der Eltern bezog. Hier ergab sich im EOSQ-24-G eine signifikante Abhängigkeit ($p = 0,006$) in Bezug auf diese Faktoren, die sich im KINDL® nicht widerspiegelte ($p = 0,495$).

In den auf die Elternbelastung bezogenen Fragen (Q17-21 im EOSQ-24-G) lag die vergebene Punktzahl bei gehfähigen Kindern bei 64 (± 23) Punkten. Der Wert bei nicht gehfähigen Kindern lag hingegen bei 55 (± 21) Punkten. Dies beschreibt einen Abfall von 9 %. Aus den Auswertungen des EOSQ-24-G lässt sich schließen, dass durch eine Beeinträchtigung in der Gehfähigkeit der Kinder eine erhöhte Elternbelastung entsteht und dies auch mit einer geringeren gesundheitsbezogenen Lebensqualität bewertet wird. Im KINDL® errechnete sich ein Mittelwert von 73 (± 19) bei gehfähigen sowie 69 (± 18) bei den nicht gehfähigen Kindern, was einen Unterschied von 4 % darstellt. In der Analyse des KINDL®s ist durch $p = 0,495$ die Aussage des EOSQ-24-G nicht signifikant zu unterstützen.

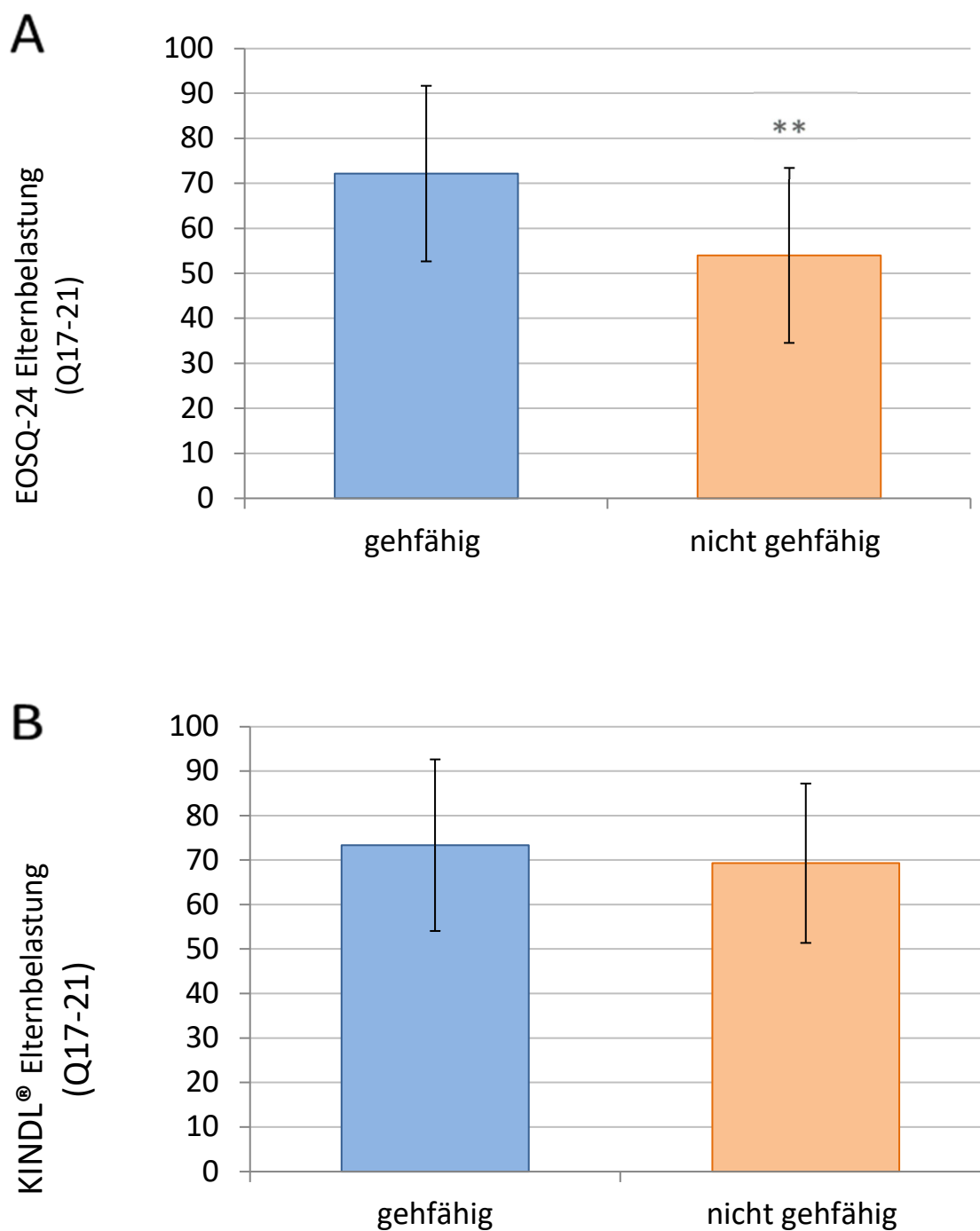


Abbildung 18: Elternbelastung in Bezug auf die Gehfähigkeit der Patienten, gruppiert nach gefähig (n = 16) und nicht gefähig (n = 29)

A: Aufgetragen ist die Elternbelastung im EOSQ-24-G in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die Gehfähigkeit der Probanden auf der x-Achse.

B: Aufgetragen ist die Elternbelastung im KINDL® in Punkten (min. 0, max. 100) auf der y-Achse gegen die Gehfähigkeit der Probanden auf der x-Achse.

Die Fehlerbalken entsprechen dem 95 %-Konfidenzintervall. ** entspricht $p > 0.01$. Die Signifikanzen beziehen sich auf die Bewertung der nicht gefähigen Kinder.

4 Diskussion

Durch die Zunahme chronischer Erkrankungen im Kindesalter gewinnt das mehrdimensionale Konstrukt der *health related quality of life* (HRQoL) zunehmend an Bedeutung (Schumacher et al. 2003). Die Erfassung des subjektiven Gesundheitsempfindens soll helfen, Patienten zu identifizieren, die ein erhöhtes Risiko aufweisen nachfolgend an Gesundheitsproblemen wie chronischen Erkrankungen (z. B. Diabetes Mellitus) oder psychischen Problemen zu erkranken. Maßnahmen und nötige Interventionen zur Identifizierung von Komplikationen und auch zur Vorbeugung sollten so frühzeitig wie möglich vorgenommen werden (Ravens-Sieberer et al. 2000, 2001, 2007).

In der vorliegenden Arbeit wurde ein Patientenkollektiv ($n = 45$) von Kindern unter 18 Jahren mit einer progressiven Wirbelsäulendeformität untersucht. Alle Kinder hatten operativ wachstumsfreundliche Implantate zur Deformitätenkorrektur eingesetzt bekommen. Bei dem einen Teil der Patienten ($n = 19$) wurde das sogenannte *Vertical-expandable-prosthetic-titanium-rib*(VEPTR®)-Implantat verwendet, welches in Folge alle sechs Monate durch eine Operation verlängert wurde. Beim anderen Teil ($n = 26$) wurden *Magnetic-expansion-control*(MAGEC®)-Stäbe eingesetzt, welche von extern alle drei Monate mit Hilfe eines Magneten ohne operativen Eingriff ausgefahren wurden. Vor der Untersuchung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität dieser Gruppen wurde angenommen, dass Familien und Patienten ohne wiederholte operative Eingriffe (MAGEC®-Gruppe) eine höhere Lebensqualität aufweisen würden, als Kinder und Familien, die wiederholt zweimal pro Jahr operiert werden mussten (VEPTR®-Gruppe). Ziel der Arbeit war die Überprüfung dieser Hypothese.

Da die gesundheitsbezogene Lebensqualität eine subjektive Einschätzung des Individuums widerspiegelt (Amelung 2018), wurde ein Messinstrument benötigt, welches eine darstellbare Auswertung dieser Einschätzung möglich macht. Hierfür kamen in dieser Studie zwei Fragebögen zum Einsatz. Einerseits wurde der aus dem deutschen Sprachraum stammende KINDL®-Fragebogen verwendet, der von Ravens-Sieberer und Bullinger erstellt und dessen Validität 2007 anhand der KiGGS-Studie geprüft und bestätigt wurde (Ravens-Sieberer et al. 2007), andererseits fand der aus Amerika stammende und ins Deutsche übersetzte EOSQ-24-G Anwendung, dessen Validität der deutschen Version als erster Schritt in der vorliegenden Studie untersucht werden sollte. Der EOSQ-24 wurde gezielt für Kinder mit *Early-Onset*-Skoliose (EOS) entwickelt, um bei diesen Patienten die gesundheitsbezogene Lebensqualität zu ermitteln (Matsumoto et al. 2016).

4.1 Validierung des EOSQ-24-G

Lange Zeit war es nicht möglich, eine valide Aussage über die Veränderung der HRQoL bei Kindern und ihren Betreuern zu generieren. Zum einen, da diesem Thema lange Zeit keine Aufmerksamkeit geschenkt wurde und erst später nicht nur das rein körperliche Empfinden sondern auch die Lebensqualität als wichtiger Parameter für Gesundheit erkannt wurde (Daig und Lehmann 2007), zum anderen, da es keine standardisierte Methode zur Erfassung der Lebensqualität bei Kindern gab (Ravens-Sieberer et al. 2001). Viele Studien zeigen nun, in welcher Weise die HRQoL von Kindern bewertet wird, welche Aspekte besondere Bedeutung verlangen und was für Komplikationen auftreten können (Harding 2001). Durch den EOSQ-24 Fragebogen wurde ein Werkzeug entwickelt, welches sich spezifisch auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität bei Kindern mit EOS und ihren Betreuern bezieht (Matsumoto et al. 2016; Mladenov et al. 2019). Durch die Analyse in der vorliegenden Studie wurden die Validität und Reliabilität der deutschen Version des Fragebogens überprüft. Mit Hilfe von Cronbachs α ergab sich für die interne Konsistenz ein Wert von $\alpha = 0,9003$, was einem exzellenten Ergebnis entspricht. Dieses Ergebnis ist vergleichbar mit anderen übersetzten Versionen des EOSQ-24 in den Sprachen türkisch (0,909), spanisch (0,897), norwegisch (0,950), dänisch (0,950) und chinesisch (0,896) (Demirkiran et al. 2015; Cheung et al. 2016; del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Molland et al. 2018; Wijdicks et al. 2019).

Für die Trennschärfe zeigten sich für alle Items Werte $> 0,3$ und somit eine gute diskriminante Validität. In den Analysen der türkischen sowie spanischen Version werden Werte $< 0,3$ beschrieben, was einer geringen Korrelation des Items mit der dazugehörigen Domäne entspricht. So wurde in der türkischen Version die geringste Reliabilität von 0,272 für das Item Q22 (finanzielle Belastung) festgestellt. Daraus lässt sich schließen, dass das Item Q22 in der türkischen Version nicht in der Lage war, Unterschiede in der Merkmalsausprägung in Bezug auf die finanzielle Belastung darzustellen. Demirkiran und Kollegen begründeten dieses Ergebnis darin, dass die Kosten der Behandlung ihrer Studienteilnehmer durch die gesetzliche Krankenversicherung finanziert wurde und somit keine wesentliche finanzielle Belastung für die Familien entstand (Demirkiran et al. 2015). In der vorliegenden Studie wurde trotz Kostenfinanzierung durch die gesetzlichen und privaten Krankenkassen in Deutschland eine gute Reliabilität (0,356) für das Item Q22 ermittelt, sodass diese Aussage für die deutsche Version nicht unterstützt werden kann. Zu diskutieren sind vermutlich die zusätzlich anfallenden Mehrkosten, die in Deutschland oftmals nicht umfassend bezahlt werden. Sie entstehen z. B. in Zusammenhang mit Arztbesuchen, den

Reisekosten zu den Kliniken, dem Arbeitsausfall der Eltern oder durch Betreuungskosten von Geschwisterkindern.

Die geringste Reliabilität in der spanischen Version (0,179) wurde in Bezug auf die Elternbelastung (Q21) gemessen. Die Autoren erklärten dieses Ergebnis durch die Heterogenität der Diagnosen. Die unterschiedlichen Grunderkrankungen führten zu unterschiedlich hoher Belastung der Eltern und Betreuer. In der Studie der spanischen Version des EOSQ-24 litten 38,6 % der Kinder an einer neuromuskulären oder syndromalen Skoliose (del Mar Pozo-Balado et al. 2016). In der vorliegenden Untersuchung lag der Anteil der neuromuskulären Skoliosen bei 43 %, was einem ähnlichen Prozentsatz entspricht. Trotzdem zeigte sich in der hier durchgeführten Evaluation für Q21 eine gute Reliabilität (0,618).

In der vorliegenden Studie zeigte sich für das Item Q12 die geringste Item-Korrelation (0,315). Dieses Item bezieht sich auf die selbständige Nahrungsaufnahme des Kindes. In anderen Veröffentlichungen ergab sich für die Trennschärfe für Q12 eine Spanne von 0,592 bis 0,7. Eine Begründung für die abweichenden Werte könnte der hohe Anteil an Kindern mit spinaler Muskelatrophie sein, welche im Allgemeinen die Arme zur selbstständigen Nahrungsaufnahme nicht umfassend einsetzen können. Durch die starke Beeinträchtigung des Muskelapparats, wie es bei der Spinalen Muskelatrophie die Regel ist, sind gezielte Bewegungen, wie das Führen der Nahrung zum Mund, Kauen und Schlucken oft eingeschränkt (Korinthenberg et al. 2005; Hagengruber und Vogel 2018). Mit 43 % neuromuskulären Skoliosen war dieser Anteil im Vergleich zu den anderen Studien am größten (12-33 %) (Demirkiran et al. 2015; Cheung et al. 2016; del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Molland et al. 2018; Wijdicks et al. 2019). Nicht nur in der Analyse der Trennschärfe, sondern auch in der Untersuchung nach Bodeneffekten wurden für das Item Q12 diskussionswürdige Werte gemessen. Es war das einzige Item, welches einen Bodeneffekt > 30 % erreichte, wobei Werte > 30 % als unzureichend erachtet werden (Kane 2006). Dieses Ergebnis lässt sich auch mit den weiteren EOSQ-24-Übersetzungen vergleichen, bei denen sich in der spanischen sowie dänischen Übersetzung der größte Bodeneffekt mit 28,2 % bzw. 29,5 % ebenfalls bei Frage Q12 fand (del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Wijdicks et al. 2019). Liegt eine schwerwiegende Erkrankung zugrunde, kann die Nahrungsaufnahme häufig unzureichend sein und wurde daher im Fragebogen vermutlich vermehrt mit der schlechtesten Wahlmöglichkeit bewertet. Durch die Häufung der negativen Bewertungen dieses Items entstand der bereits beschriebene Bodeneffekt. Dieser Effekt hatte zur Folge,

dass die Antwortmöglichkeiten im unteren Bereich in Bezug auf das Item Q12 durch den Bodeneffekt vermutlich nicht ausreichend differenziert werden konnten.

Deutlich häufiger kam es zum Deckeneffekt (Werte > 30 %). Dies ist der Fall, wenn Fragen fast ausschließlich mit der maximalen Punktzahl beantwortet wurden. In der hier vorliegenden Studie wurde bei 14 Items ein Deckeneffekt beschrieben, bei drei Items lag der Wert > 50 %. Der höchste Deckeneffekt fand sich dabei für das Item Q5. Q5 fällt ebenfalls in der spanischen, dänischen, norwegischen und chinesischen Übersetzung mit dem höchsten Deckeneffekt auf. In der türkischen Übersetzung findet sich der größte Deckeneffekt bei dem Item Q6 (Demirkiran et al. 2015; Cheung et al. 2016; del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Molland et al. 2018; Wijdicks et al. 2019). Beide Items befassen sich mit der Lungenfunktion der Kinder. Wijdicks et. al. (2019) erklärten dieses Ergebnis durch eine gute Lungenfunktion der Teilnehmer in der Studie. Die deutsche Version des EOSQ-24-G detektierte ebenfalls für die Items Q8 und Q9 Deckeneffekte > 50 %. Diese Fragen gehen auf die selbstständige Bewegung des Oberkörpers sowie das Sitzvermögen ein. Es kann hier auf einen Zusammenhang zwischen den Items Q5, Q8 und Q9 geschlossen werden, da eine aufrechte Körperhaltung, eine verbesserte Sitzfähigkeit und eine Verminderung der Skoliose im Allgemeinen auch eine Verbesserung der Lungenfunktion nach sich zieht (Campbell et al. 2003; Cunin 2015).

In der dänischen Übersetzung wurden auch bei den Items Q21 und Q22 mit 52 % bzw. 57 % hohe Deckeneffekte beschrieben, welche von den Autoren mit der finanziellen Unterstützung durch das öffentliche Gesundheitssystem erklärt wurden (Wijdicks et al. 2019). Das heißt, dass ähnlich wie in der türkischen Studie erläutert durch die Erkrankung des Kindes keine finanzielle Belastung entstand und diese Items daher besonders gut bewertet wurden. In der vorliegenden deutschen Studie wurden trotz finanzieller Deckung der Kosten durch Versicherungsträger für Q21 und Q22 keine hohen Deckeneffekte erreicht. Dies lässt sich vermutlich durch die bereits erwähnten zusätzlichen Mehrkosten erklären. Durch Krankenhausaufenthalte, Fahrt- und Unterbringungskosten, Zusatzkosten von Betreuung der Geschwisterkinder oder notwendigen Anschaffungen, die den Alltag mit einem erkrankten Kind erleichtern, lässt sich eine zusätzliche finanzielle Belastung der Eltern nicht ausschließen.

In allen vorliegenden Übersetzungen trat der Deckeneffekt insgesamt häufiger auf als der Bodeneffekt (Demirkiran et al. 2015; Cheung et al. 2016; del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Molland et al. 2018; Mladenov et al. 2019; Wijdicks et al. 2019). Eine mögliche Begründung lieferte die spanische Studie des EOSQ-24 mit der Feststellung, dass die Mehrzahl ihrer

Probanden eine sehr geringe Skoliose (Cobb-Winkel $31,1^\circ$) aufwies. Diese Begründung konnte durch die hier erfolgten Untersuchungen nicht bestätigt werden, da das hier untersuchte Kollektiv einen hohen Skoliosekrümmungswinkel ($68,7^\circ$) aufwies und 78 % der Kinder deshalb operiert werden mussten.

In der vorliegenden Studie erfolgte die Befragung bei der Mehrheit der Teilnehmer (67 %) während oder kurz nach einer ambulanten Intervention oder während eines stationären Aufenthaltes zur Implantatverlängerung, was zu einer positiveren Wahrnehmung der Lebensqualität führen könnte. Daher wird die Begründung der gehäuften Deckeneffekte nicht in der Ausprägung der Erkrankung, sondern vielmehr im Zeitpunkt der Befragung selbst gesehen (Mladenov et al. 2019).

Zusammenfassend lässt sich sagen, dass sich durch die Analyse der deutschen Version des EOSQ-24-G eine gute Validität und auch Reliabilität des Fragebogens bestimmen lies, sodass er als valides Messinstrument für die gesundheitsbezogene Lebensqualität für Kinder mit EOS bewertet werden und in klinischen Studien Anwendung finden kann. Auf Grund der oben genannten Beobachtung sollte zukünftig die Befragung in einem standardisierten Zeitrahmen und Setting stattfinden, um annähernd identische Bedingungen zu schaffen. Eine Befragung zu Beginn der Therapie und weitere nach festgelegten Zeitintervallen sollten einen repräsentativen Vergleich der Entwicklung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität ermöglichen (Mladenov et al. 2019).

4.2 Untersuchung von Einflussfaktoren auf die Lebensqualität

4.2.1 Faktoren, die keinen Einfluss auf die HRQoL haben

In der vorliegenden Studie fanden sich keine Korrelationen zwischen der Lebensqualität und Geschlecht bzw. dem Alter der Kinder. In anderen, nicht auf Skoliose bezogenen Untersuchungen wiesen jüngere Kinder eine bessere Lebensqualität als Jugendliche auf und auch die männlichen Probanden erreichten in Fragebogenstudien höhere Werte als die weiblichen Probanden gleichen Alters (Bullinger und Ravens-Sieberer 2006; Michel et al. 2009; Meade und Dowswell 2015; Haraldstad et al. 2017). Dieser Alters- bzw. Geschlechtereffekt zeigte sich jedoch erst ab 8 Jahren. Die gesundheitsbezogene Lebensqualität bei jüngeren Kindern (< 8 Jahren) wurde bei Mädchen und Jungen gleich

bewertet (Michel et al. 2009). Eine Erklärung ist unter anderem die unterschiedliche Wahrnehmung der Pubertät beider Geschlechter (Meade und Dowswell 2015).

Der Altersdurchschnitt bei Befragung in der vorliegenden Studie lag bei 9,4 Jahren. Trotzdem konnte weder das Alter noch das Geschlecht einen sichtbaren Effekt erzielen. Auch in den anderen EOSQ-24-Übersetzungen wurde weder das Alter noch das Geschlecht als Einflusskriterium auf die HRQoL beschrieben, obwohl das Durchschnittsalter ebenfalls > 8 Jahre lag (Demirkiran et al. 2015; Cheung et al. 2016; Molland et al. 2018; Wijdicks et al. 2019). Eine mögliche Erklärung könnte die Erkrankung Skoliose liefern, welche allgemeine Faktoren wie das Einsetzen der Pubertät in den Hintergrund treten lassen könnte.

Ebenfalls spielte die Distanz zur Klinik in dieser Studie nur eine untergeordnete Rolle. Andere Studien beschrieben eine finanzielle Belastung der Patienten bei großen Distanzen zur behandelnden Einrichtung (Dubach et al. 2009). Trotzdem nehmen die hier untersuchten Patienten und ihre Familien/Betreuer für die Behandlung an der UMG bewusst einen langen Anfahrtsweg in Kauf. Vermutlich wünschten sich Eltern für ihre Kinder die bestmögliche und kompetenteste Behandlung, wobei die Distanz eine untergeordnete Rolle in der Wahl der Klinik spielte. Daher wirkte sich die Distanz zur Klinik hier nicht auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität aus.

Des Weiteren wurde der Einfluss des Gewichts in Form des altersbezogenen BMI untersucht. Dieses Thema wird häufig und kontrovers diskutiert. Studien belegten, dass bei Kindern mit steigendem Übergewicht die gesundheitsbezogene Lebensqualität sinkt (Reinehr 2011). Übergewicht hat sowohl körperliche als auch psychische Auswirkungen. Neben medizinischen Problemen können auch die fehlende soziale Integration Kinder und ihre Familien belasten (Reinehr 2011; Krause et al. 2014; Lim et al. 2015). In der vorliegenden Studie zeigten sich keine signifikanten Unterschiede der HRQoL in Bezug auf den BMI. Im Gegenteil zeigten untergewichtige Kinder tendenziell schlechtere Lebensqualitätswerte als übergewichtige Patienten. Dies könnte damit zusammenhängen, dass bei geringem Unterhautfettgewebe häufiger Komplikationen wie Schmerzen, Infektionen und Druckstellen auftreten können. Letztere entstehen durch die Immobilität der Kinder (Frimberger 2019), aber auch durch die wachstumsfreundlichen Implantate, welche sich durch die Haut abdrücken. Als Folge kann es letztendlich bei Implantatinfektion zum Implantatausbau und damit zusätzlichen Krankenhausaufenthalten kommen (Lorenz et al. 2019). Auch Hecht et al. (2015) beschrieben Untergewicht als Risikofaktor für eine schlechtere Lebensqualität (Koletzko et al. 2016). Gedeihstörungen, höhere Komplikationsraten und längere Krankenhausaufenthalte konnten in diesem

Patientenkollektiv beobachtet werden (Koletzko et al. 2016). Ob und welchen Einfluss das Gewicht auf die Lebensqualität hat, hängt vermutlich auch stark von der Ausprägung des Unter- bzw. Übergewichts ab.

Molland et al. zeigten, dass Teilnehmer in chirurgischer Behandlung einen signifikant niedrigeren Total Score aufwiesen als solche in konservativer Therapie. Die operative Gruppe der Kinder hatten in der Mehrzahl eine neuromuskuläre oder syndromale Skoliose (Molland et al. 2018). Auch in der spanischen, chinesischen und dänischen Übersetzung des EOSQ-24 wurde der Einfluss der chirurgischen Therapie diskutiert. In allen drei Übersetzungen wurde kein signifikanter Unterschied in der Gesamtbewertung der verschiedenen Behandlungsgruppen (konservativ vs. operativ) gefunden. (Cheung et al. 2016; del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Wijdicks et al. 2019). Cheung et al (2016) beschrieben allerdings valide Unterschiede in den Subdomänen der Elternbelastung, der finanziellen Auswirkung und dem emotionalen Empfinden im Vergleich zwischen Korsettbehandlung und operativen Verfahren. Patienten mit Korsettbehandlung schnitten hier schlechter ab, als die Gruppe der operativ versorgten Kinder (Cheung et al. 2016).

In der vorliegenden Studie befanden sich alle Teilnehmer in chirurgischer Behandlung. Trotzdem erhielten Kinder mit neuromuskulärer Skoliose die schlechtesten Gesamtpunktzahlen. Dies verdeutlicht, dass nicht nur die chirurgische Behandlung als solche, sondern auch die eigentliche Diagnose selbst für die Bewertung der HRQoL ausschlaggebend zu sein scheint. In dieser Patientengruppe zeigten sich häufig Komorbiditäten, wie Kontrakturen, ein Beckenschiefstand, spastische Muskelverspannungen, Hüftgelenksluxationen, Druckstellen und Schmerzen, welche sich zusätzlich auf eine Reduktion der gesundheitsbezogenen Lebensqualität auswirkten (Carstens 1999; Zeller 2000). In der Gruppe der neuromuskulären Skoliosen waren die Kinder überwiegend nicht gehfähig.

Einen radiologischen Parameter zur Quantifizierung einer Skoliose stellt der Cobb-Winkel dar (Cobb et al. 1948). Es besteht ein Zusammenhang zwischen dem Ausmaß der Skoliose und der Ausbildung einer Thoraxdeformität und dem TIS (*thoracic insufficiency syndrom*) (Campbell et al. 2003). Hierbei kann es zu einer eingeschränkte Lungenfunktion kommen, die ebenfalls zu einer Einschränkung der Lebensqualität der Patienten führt (Mayer 2009). Daher wurde auch der Cobb-Winkel als Einflussfaktor auf die HRQoL untersucht. In der dänischen sowie spanischen Übersetzungsstudie zum EOSQ-24 wurde der Cobb-Winkel als valider Einflussfaktor auf die HRQoL beschrieben. Die gemessenen Mittelwerte der Wirbelsäulenkrümmung lagen bei 35° (dänisch) bzw. 31° (spanisch). Verglichen wurden die

Werte bei einem Cobb-Winkel von $< 30^\circ$ zu einem Winkel $> 30^\circ$. Kinder mit einem Winkel $< 30^\circ$ erreichten einen besseren Total Score als die Kinder mit einem Winkel von $> 30^\circ$. Beide Studien lieferten Signifikanzwerte von $p = 0,003$ bzw. $p = 0,004$ (del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Wijdicks et al. 2019). In der vorliegenden Arbeit wurde der Cobb-Winkel bei Diagnose, post-operativ sowie bei Abgabe der Fragebögen gemessen, um so zusätzlich die relative Verbesserung der Wirbelsäulenverkrümmung bzw. die erneute Verschlechterung im Verlauf zu bestimmen. Es wurde generell keine Korrelation zwischen der HRQoL und dem Cobb-Winkel prä-operativ, post-operativ oder bei Fragebogenabgabe festgestellt. Cheung et al. beschrieben ebenfalls keine Unterschiede in der Lebensqualität in Bezug auf die Schwere der Krümmung (Cheung et al. 2016). Hsu et al. (2019) postulierten, dass nicht nur der absolute Winkelwert, sondern besonders die begleitende Klinik ausschlaggebend für die Zufriedenheit zu sein scheint. Der Winkel allein ist nicht aussagekräftig darüber, welche Autonomie das Kind aufweist oder welche psychische Beeinträchtigung besteht. Vielmehr muss man die Komplexität der Skoliose und die Begleitdiagnose und Komorbiditäten zusätzlich beachten.

In der vorliegenden Untersuchung fand sich kein signifikanter Unterschied bei Patienten mit wiederholten Operationen (VEPTR®-Gruppe) und Kindern, die ambulant verlängert wurden. Doany et al. (2018) beschrieben in ihrer Studie, dass auch Patienten mit MAGEC®-Stäben und ihre Betreuer bei jeder Verlängerung einer Stresssituation ausgesetzt waren, in der sie mit Wartezeit, Arbeitszeitausfall und Unterbrechung der Tagesroutine konfrontiert wurden. Desweiteren würde durch häufigere Behandlungen der Kinder schneller das Gefühl entstehen „anders zu sein“. Diese Aspekte sprechen gegen einen deutlichen Vorteil von MAGEC®-Implantaten mit ambulanten Verlängerungen gegenüber dem VEPTR®-System mit operativen Eingriffen. Auch in der vorliegenden Arbeit zeigte sich kein signifikanter Unterschied in der HRQoL zwischen den VEPTR®- und MAGEC®-Gruppen. Aslan et al. (2017) belegten, dass kein Vorteil des MAGEC®-Implantats (ohne das Vorkommen von Komplikationen), zu den traditionellen *growing rods* bestand. Die Anzahl an Operationen wurde als nicht ausschlaggebend für die Lebensqualität bewertet (Bekmez et al. 2019). Betrachtet man in der vorliegenden Studie die Therapiedauer der Patienten, wird deutlich, dass es zu keiner negativen Korrelation mit der gesundheitsbezogenen Lebensqualität kommt. Eine längere Therapiedauer war nicht mit einer schlechteren Bewertung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität verbunden. Dies könnte zum einen daran liegen, dass die Kinder und ihre Betreuer bereits an die Operationen und die dadurch entstehenden Anforderungen gewöhnt waren, zum anderen daran, dass

durch positive Ergebnisse und Verbesserung des klinischen Befundes die Verlängerungen als weniger gravierend eingestuft wurden.

4.2.2 Faktoren, die Einfluss auf die HRQoL haben

In der vorliegenden Untersuchung bewirkten das Auftreten von Komplikationen und eine nicht vorhandene Gehfähigkeit eine signifikante Reduktion der gesundheitsbezogenen Lebensqualität.

Es ist bekannt, dass es bedingt durch die lange Therapiedauer bei operativ versorgten EOS-Patienten häufiger Komplikationen auftreten. Es kann neben Implantatausbrüchen und Dislokationen zu Ossifikationen, Infektionen oder auch psychischen Belastungen kommen (Bess et al. 2010; Sankar et al. 2011; Groenefeld und Hell 2013; Plaass et al. 2016; Wagner et al. 2017; Lorenz et al. 2019). Die vorliegende Arbeit zeigte, dass auch die subjektiv empfundene Lebensqualität bei Auftreten von Komplikationen als schlechter bewertet wurde. Insgesamt kam es im Behandlungsverlauf bei 51 % (n = 23) der Teilnehmer zu Komplikationen. Beide Fragebögen ergaben eine signifikant schlechtere Lebensqualität als bei Kindern ohne Komplikationen (n = 22) (p = 0,037 im EOSQ-24-G; p = 0,038 im KINDL®). Bei selektiver Betrachtung der Elternbelastung (Q17-21) waren ebenfalls die Werte des KINDL®-Tests signifikant (p = 0,022). Diese Ergebnisse beschrieben eine deutliche Einschränkung der Lebensqualität durch das Auftreten von Komplikationen und eine Mehrbelastung der Eltern oder Betreuer. Dies ist gut nachzuvollziehen, wenn man bedenkt, dass Komplikationen häufig zusätzliche Krankenhausaufenthalte, eine verlängerte Therapiedauer oder ungeplante Operationen bedeuten. Vergleicht man diese Ergebnisse mit den anderen EOSQ-24-Übersetzungen, wird in keiner Veröffentlichung eine Korrelation mit dem Auftreten von Komplikationen beschrieben (Demirkiran et al. 2015; Cheung et al. 2016; del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Matsumoto et al. 2016; Molland et al. 2018; Wijdicks et al. 2019). Einerseits kann dies daran liegen, dass eine Untersuchung auf eine Auswirkung von Komplikationen nicht vorgenommen wurde, oder zum andern keine repräsentativen Daten zur Verfügung standen. Doch auch bei anderen Krankheitsbildern wurde das Auftreten von Komplikationen mit einer niedrigen HRQoL assoziiert. Jiao et al. (2017) prüften bei 1275 Patienten mit Diabetes mellitus die Auswirkungen von Komplikationen in Bezug auf die gesundheitsbezogene Lebensqualität. Die Autoren stellten anhand von Fragebögen (SF12v2, SF-6D) einen deutlich niedrigeren Wert beim Auftreten von Komplikationen fest. In der Studie von Maydick-Youngberg wurde bei ansteigender Anzahl an Komplikationen

ein signifikanter Abfall der HRQoL verzeichnet (Maydick-Youngberg 2017) und auch in einer Untersuchung über prä- und postoperative Lebensqualität von Heuschen et al (1998) zeigte sich ein negativer Einfluss von postoperativen Komplikationen auf die Bewertung der Lebensqualität.

Neben der Unplanbarkeit von Komplikationen und den damit verbundenen Interventionen wurden auch psychosoziale Auswirkungen wie Angst, Depressionen oder Somatisierung als häufige Pathologien nach operativer Therapie beschrieben. Das wiederholte Erleben der Vorbereitung, der Narkose und Operation sowie der postoperativen Situation erhöhten das Risiko von psychosozialen Dysfunktionen (Flynn et al. 2012; Aslan et al. 2017).

Die Diagnose, welche zur Skoliose führte, spielte eine signifikante Rolle für den Wert im EOSQ-24-G. Kinder mit neuromuskulärer oder syndromaler Skoliose erreichten im Vergleich zu idiopathischer oder kongenitaler Skoliose immer niedrigere Werte. In der vorliegenden Arbeit wurde zwar kein signifikanter Unterschied in der Lebensqualität zwischen den verschiedenen Skolioseformen gemessen, trotzdem wird deutlich, dass die Kinder mit neuromuskulären Skoliosen den geringsten Total Score erreichten. In Zusammenarbeit mit der Klinik Sankt Augustin ergab sich zudem ein Signifikanzwert von $p = 0,023$ im EOSQ-24-G für diese Untersuchung (Mladenov et al. 2019). Eng mit der Ausgangsdiagnose ist die Gehfähigkeit der Kinder zu sehen. 64 % der Patienten war nicht gehfähig, was nicht zuletzt durch die häufige Diagnose der Spinalen Muskelatrophie bedingt war (27 %). Die Einschränkung in der Gehfähigkeit war bei diesen Kindern oft nur eine von vielen Einschränkungen, die den Muskelapparat betrafen (Korinthenberg et al. 2005). Dies hatte einen immensen Verlust der Selbstständigkeit der Kinder und eine extrem hohe Hilfebedürftigkeit in allen Bereichen des alltäglichen Lebens zur Folge, was wiederum eine hohe Belastung für die Pflegenden bedeutete. Der Grund weshalb der KINDL® kein valides Ergebnis lieferte, lässt sich darin erklären, dass die Gehfähigkeit bzw. das Fehlen der Gehfähigkeit zumeist ein körperliches Symptom einer Dysfunktion des Muskelapparates ist. Da der EOSQ-24 ein auf EOS spezialisierter Fragebogen ist, werden diese Aspekte hier besser abgedeckt als im KINDL®, welcher als universaler Fragebogen für Kinder genutzt wird (Ravens-Sieberer 2000; Matsumoto et al. 2016). Auch bei den spanischen, dänischen sowie chinesischen Studien wurde die Gehfähigkeit als Einflussfaktor auf die HRQoL bestimmt (Cheung et al. 2016; del Mar Pozo-Balado et al. 2016; Wijdicks et al. 2019). Die dänische Studie lieferte einen Signifikanzwert von $p < 0,001$ mit einem Anteil von 25,2 % an nicht gehfähigen Probanden (Wijdicks et al. 2019). Petersen et al. (2008) berichtete über eine signifikante negative Korrelation von verminderter Gehfähigkeit mit der Lebensqualität. In

der Fragebogenstudie wiesen Bereiche wie „Soziale Abgrenzung“, „Unabhängigkeit“, „Einschränkungen“ sowie „Emotion“ und „Soziale Integration“ bei verminderter Gehfähigkeit verminderte Werte und somit eine verminderte Lebensqualität auf. In der Untersuchung von Şeker Abanoz et al. (2019) wurde die Gehfähigkeit sogar als größter Faktor auf die HRQoL bei Kindern mit Myelomeningozele beschrieben. Die Autoren folgerten, dass durch eine gezielte Aktivität und Förderung des Gehvermögens der Kinder auch die gesundheitsbezogene Lebensqualität zu steigern sei.

Es ist nicht verwunderlich, dass durch eine vermehrte Hilfebedürftigkeit der Kinder die Belastung auf Eltern und Betreuer wuchs. In der Studie von Telci et al. (2018) wurde dies in einer steigenden Hoffnungslosigkeit der Mütter von behinderten Kindern bei Verlust der Gehfähigkeit ausgedrückt. In einer Fragebogenstudie wurden 177 Mütter in drei Gruppen nach Gehfähigkeit der Kinder eingeteilt (gehfähig, teilweise gehfähig und nicht gehfähig). Je eingeschränkter die Kinder in ihrem Gehvermögen waren, desto stärker fand sich eine Hoffnungslosigkeit bei den Müttern.

4.3 Limitation und Ausblick

In der vorliegenden Arbeit konnte gezeigt werden, dass die deutsche Version des *Early-Onset Scoliosis Questionnaire* (EOSQ-24-G) ein valides Instrument darstellt, um die gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern mit *Early-Onset*-Skoliosen zu bestimmen (Mladenov et al. 2019).

Die Analyse zeigte keinen signifikanten Unterschied zwischen dem EOSQ-24-G und dem Universalfragenbogen für Kinder und Jugendliche zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität (KINDL®). Beide Fragebögen sind in der Lage gleiche Informationen abzubilden, wenn auch auf unterschiedlichen Skalenniveaus.

Die Untersuchung der Einflussfaktoren auf die HRQoL ergab signifikante Ergebnisse für die Einschränkung in der Gehfähigkeit der Kinder, das Vorkommen von Komplikationen sowie für die unterschiedlichen Diagnosen. Kinder mit neuromuskulärer Skoliose sind durch ihre Grunderkrankung häufig sehr stark körperlich eingeschränkt (Putzier et al. 2016) und wiesen die geringste gesundheitsbezogene Lebensqualität des Patientenkollektivs auf (Hell et al. 2019).

Die zu Anfang gestellte Hypothese, dass wiederholte Operationen einen negativen Einfluss auf die HRQoL der Kinder und ihrer Betreuer darstellen, konnte in dieser Arbeit nicht unterstützt werden. Es wurde kein Unterschied zwischen den beiden wachstumsfreundlichen Implantaten (MAGEC®, VEPTR®) gefunden. Vielmehr die Belastung durch erneute Krankenhausaufenthalte auf Grund von Komplikationen führt zu einer Mehrbelastung der Kinder und ihren Betreuern (Doany et al. 2018; Mladenov et al. 2019).

Limitationen dieser Studie stellt die Heterogenität des Befragungszeitpunktes dar. Situativ kann die Bewertung im Fragebogen unterschiedlich ausfallen. Nach einer erfolgreichen Verlängerung etwa kann durch den gut überstandenen Eingriff eine eher positivere Bewertung der Gesamtsituation stattfinden.

Des Weiteren fehlen repräsentative Daten der gesundheitsbezogenen Lebensqualität vor der Primärimplantation der wachstumsfreundlichen Stäbe, wodurch der Einfluss des Therapieerfolgs erfasst werden könnte. Zudem wären Studien interessant, die die HRQoL bei Familien und Kindern mit Wirbelsäulendeformitäten im Langzeitverlauf unter verschiedenen Therapieformen beobachten.

Da für ein ganzheitliches Therapiekonzept die Bedeutung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität immer mehr in den Vordergrund rückt (Radoschewski 2000; Kohl und Strauss 2010) und durch validierte Fragebögen nun auch die Möglichkeit besteht objektiverbare Informationen zu erfassen (Ravens-Sieberer et al. 2007; Mladenov et al. 2019), kann perspektivisch davon ausgegangen werden, dass die Erfassung der HRQoL ein fester Bestandteil des Behandlungskonzepts in der Pädiatrie werden wird. Vor allem in Bezug auf chronische Erkrankungen können die Kinder so vor weiteren Komplikationen geschützt und präventive Maßnahmen eingeleitet werden (Daig und Lehmann 2007).

5 Zusammenfassung

In der vorliegenden Arbeit wurden die Lebensqualität und Belastungen von Familien untersucht, deren Kinder aufgrund einer zunehmenden Wirbelsäulendeformität mit wachstumsfreundlichen Implantaten versorgt wurden.

Hierzu wurde in einem ersten Schritt der *Early-Onset*-Skoliose-Fragebogen (EOSQ-24) mit 24 Items in eine deutsche Version (EOSQ-24-G) übersetzt und validiert. Die transkulturell angepasste Vorwärts- und Rückwärtsübersetzung der englischen Originalversion des EOSQ-24 wurde von einem Expertenausschuss durchgeführt, der beide Sprachen fließend beherrschte. Anschließend wurde die deutsche Version des EOSQ-24 auf 67 (33 männliche, 34 weibliche) *Early-Onset*-Skoliose(EOS)-Patienten mit einem Durchschnittsalter von 8,7 Jahren zum Zeitpunkt der Erhebung angewendet. Die Datenqualität wurde anhand des Mittelwerts, der Standardabweichung, des Prozentsatzes fehlender Daten und des Ausmaßes der Decken- und Bodeneffekte bewertet. Die Zuverlässigkeit wurde durch interne Konsistenz unter Verwendung von Cronbach- α - und Item-Total-Korrelationen abgeschätzt. In diesem Kollektiv wurden 12 Kinder konservativ ($n = 7$ beobachtet, $n = 5$ mit Korsett) und 55 Patienten operativ mit wachstumsfreundlichen Implantaten behandelt. Alle Items zeigten eine sehr gute bis ausgezeichnete interne Konsistenz (0,879 bis 0,903). Die Bodeneffekte lagen zwischen 0 % und 31 % und die Deckeneffekte zwischen 9 % und 78 %. Der berechnete Cronbachs α für die 24-Punkte-Skala betrug 0,903, was auf eine ausgezeichnete Zuverlässigkeit hinweist. Somit konnte für den EOSQ-24-G eine hervorragende Zuverlässigkeit ermittelt werden. Der Fragebogen stellte ein valides Instrument zur Messung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität von Kindern mit *Early-Onset*-Skoliose dar.

In einer zweiten Studie wurde die Lebensqualität von Familien und 45 Kindern unter 10 Jahren, welche operativ mit zwei verschiedenen Arten von wachstumsfreundlichen Implantat versorgt worden waren, mit dem EOSQ-24-G und dem deutschen auf Kinder und Jugendliche spezialisierte Universalfragebogen KINDL® evaluiert. 42 % waren mit dem *Vertical-expandable-prosthetic-titanium-rib*(VEPTR®)-Implantat, welches alle sechs Monate durch eine Operation verlängert wird, und 58% mit dem *Magnetic-expansion-control*(MAGEC®)-Verfahren, was ambulante externe Verlängerungen mittels Magnet alle drei Monate beinhaltet, versorgt worden. Bei der Auswertung der Daten zeigte sich kein signifikanter Einfluss von Alter, Geschlecht, *Body-Mass-Index*, Anzahl der geplanten operativen Eingriffe, Wahl des Implantates inklusive der daraus resultierenden

Nachbehandlung, Ausmaß der Skoliose vor und nach primärer Operation oder im Verlauf, sowie die Entfernung zur Klinik auf die individuelle Lebensqualität. Es konnte ein signifikanter Einfluss auf eine Verminderung der Lebensqualität festgestellt werden, wenn Komplikationen auftraten, die Kinder nicht gehfähig waren und/oder Begleitdiagnosen wie neuromuskuläre oder syndromale Erkrankungen vorlagen.

Zusammenfassend lässt sich sagen, dass mit dem EOSQ-24-G ein valides Messinstrument geschaffen wurde, was in Zukunft in klinischen Studien Anwendung finden kann. Wider Erwarten konnte kein negativer Einfluss von wiederholten geplanten Operationen (VEPTR®- versus MAGEC®-Gruppe) auf die Lebensqualität gefunden werden. Erwartungsgemäß beeinflusste eine schwere neuromuskuläre Begleiterkrankung mit Verlust der Gehfähigkeit (z. B. Spinale Muskelatrophie) und Einschränkung der Selbstständigkeit die Lebensqualität der Kinder und ihrer Pflegenden negativ. Für die Behandlung von Kindern mit Wirbelsäulendeformitäten und die Betreuung der Familien ist daher die maximale Förderung der Selbstständigkeit bzw. der Erhalt derselben sowie die Vermeidung von Komplikationen eminent wichtig.

6 Anhang

6.1 EOSQ-24-G Fragebogen

Evaluierungsbogen Skoliose

Name und Vorname des Kindes: _____ Geboren am:

Ausgefüllt am: _____ vom: _____
 (Datum) (Name und Beziehung zum Kind: z. B. Mutter, Vater, Betreuer;-in)

Sehr geehrte Eltern und Betreuer, um den Zustand Ihres Kindes besser einschätzen zu können, bitten wir Sie die folgenden Fragen sorgfältig zu lesen und das Zutreffende einzukreisen.

Wir möchten Sie vergewissern, dass Ihre Angaben vertraulich behandelt werden.

Allgemeiner Gesundheitszustand: in den vergangenen 4 Wochen				
1. Wie würden Sie den Gesundheitszustand Ihres Kindes beschreiben?				
schlecht	mittelmäßig	gut	sehr gut	ausgezeichnet
2. Wie oft war Ihr Kind krank?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie

Schmerzen/Unwohlsein: in den vergangenen 4 Wochen				
3. Wie oft hatte Ihr Kind Schmerzen oder hat sich nicht wohl gefühlt?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie
4. Wie stark waren die Schmerzen bzw. die Beschwerden?				
sehr stark	stark	mittel	leicht	keine Schmerzen

Atemfunktion: in den vergangenen 4 Wochen				
5. Wie schwierig war es für Ihr Kind altersentsprechend zu weinen / lautieren / sprechen ohne dabei kurzatmig zu werden?				
schwierig	eher schwierig	nicht so schwierig	eher einfach	einfach

Atemfunktion: in den vergangenen 4 Wochen				
6. Wie oft war Ihr Kind während körperlicher Belastung kurzatmig?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie

Mobilität: in den vergangenen 4 Wochen				
7. Wie oft war Ihr Kind in seiner Mobilität eingeschränkt?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie

Körperfunktion: in den vergangenen 4 Wochen				
8. Wie schwierig war es für Ihr Kind selbstständig den Oberkörper zu bewegen?				
schwierig	eher schwierig	nicht so schwierig	eher einfach	einfach
9. Wie schwierig war es für Ihr Kind ohne Unterstützung zu sitzen?				
schwierig	eher schwierig	nicht so schwierig	eher einfach	einfach
10. Wie schwierig war es für Ihr Kind beim Krabbeln / Gehen / Laufen das Gleichgewicht zu halten?				
schwierig	eher schwierig	nicht so schwierig	eher einfach	einfach

Alltagsleben: in den vergangenen 4 Wochen				
Wie schwierig war es für Ihr Kind sich alleine anziehen oder beim Anziehen zu helfen? (z. B.: Arme durch Ärmel schieben, Beine durch Hose schieben, Knöpfe auf-/zumachen)				
schwierig	eher schwierig	nicht so schwierig	eher einfach	einfach
12. Wie einverstanden sind Sie mit der Aussage? „Mein Kind braucht mehr Zeit als ein gesundes Kind, um die gleiche Essensmenge zu sich zu nehmen.“				
sehr einverstanden	eher einverstanden	weder noch	eher nicht einverstanden	überhaupt nicht einverstanden

Müdigkeit/Ausdauer: in den vergangenen 4 Wochen				
13. Wie oft war Ihr Kind müde?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie
14. Wie schwierig war es für Ihr Kind seine Energie den ganzen Tag zu behalten?				
schwierig	eher schwierig	nicht so schwierig	eher einfach	einfach

Emotionale Entwicklung: in den vergangenen 4 Wochen				
15. Wie oft war Ihr Kind aufgrund seiner gesundheitlichen Situation ängstlich oder nervös?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie
16. Wie oft war Ihr Kind aufgrund seiner gesundheitlichen Situation frustriert?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie

Belastung für die Eltern: in den vergangenen 4 Wochen				
17. Wie oft waren Sie aufgrund der gesundheitlichen Situation Ihres Kindes ängstlich oder nervös?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie
18. Wie oft hat der Gesundheitszustand Ihres Kindes Familienaktivitäten gestört?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie
19. Wieviel wurde Ihre eigene Leistungsfähigkeit durch die Gesundheitliche Situation Ihres Kindes beeinträchtigt?				
sehr viel	viel	etwas	wenig	überhaupt nicht
20. Wie oft fehlten Sie wegen der gesundheitlichen Situation Ihres Kindes bei der Arbeit, kamen zu spät oder verzichteten auf andere Aktivitäten?				
immer	meistens	manchmal	selten	nie
21. Haben Sie trotz der gesundheitlichen Situation Ihres Kindes genug Zeit mit Ihrer Familie / Ihrem Lebenspartner oder Ehepartner verbracht?				
nie	selten	manchmal	meistens	immer

Finanzielle Auswirkung: in den vergangenen 4 Wochen				
22. Wurden Sie durch die Diagnose „Skoliose“ bei Ihrem Kind finanziell belastet?				
extrem belastet	sehr belastet	moderat belastet	wenig belastet	überhaupt nicht belastet


Zufriedenheit: in den vergangenen 4 Wochen				
23. Wie zufrieden ist Ihr Kind mit seiner Fähigkeit, selbständig etwas zu machen?				
sehr unzufrieden	unzufrieden	weder noch	zufrieden	sehr zufrieden
24. Wie zufrieden sind Sie mit der Fähigkeit Ihres Kindes, selbstständig etwas zu machen?				
sehr unzufrieden	unzufrieden	weder noch	zufrieden	sehr zufrieden

Besonderheiten, Kommentare:
Vielen Dank!

6.2 KINDL® Fragebögen

6.2.1 KiddyKINDL® Elternversion 3-6 Jahre

ID: _ _ _ _ _


Fragebogen zur Lebensqualität von Kindern	
Kiddy-KINDL 3 - 6 Jahre Elternversion	

Sehr geehrte Mutter, sehr geehrter Vater,

vielen Dank, dass Sie sich bereit erklärt haben, diesen Bogen zum Wohlbefinden und zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität Ihres Kindes auszufüllen.

Bei den nun folgenden Fragen möchten wir Sie bitten, folgende Instruktionen zu beachten.

- ⇒ Lesen Sie bitte jede Frage genau durch,
- ⇒ überlegen Sie, wie Ihr Kind sich in der letzten Woche gefühlt hat,
- ⇒ kreuzen Sie die Antwort an, die für Ihr Kind am besten zutrifft.

Ein Beispiel:					
In der letzten Woche ...					
	nie	selten	manch- mal	oft	immer
... hat mein Kind sich wohl gefühlt.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Mein Kind ist ein: Mädchen Junge Alter des Kindes: ___ Jahre

Sie sind: Mutter Vater Sonstiges _____?

Ausfülldatum: ___ / ___ / ___ (Tag / Monat / Jahr)

1. Körperliches Wohlbefinden

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... hat mein Kind sich krank gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hatte mein Kind Kopfschmerzen oder Bauchschmerzen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... war mein Kind müde und schlapp	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hatte mein Kind viel Kraft und Ausdauer	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

2. Seelisches Wohlbefinden

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... hat mein Kind viel gelacht und Spaß gehabt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hatte mein Kind zu nichts Lust	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hat mein Kind sich allein gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hat mein Kind sich ängstlich oder unsicher gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

3. Selbstwert

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... war mein Kind stolz auf sich	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... fühlte mein Kind sich wohl in seiner Haut	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... mochte mein Kind sich selbst leiden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hatte mein Kind viele gute Ideen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

4. Familie

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manchmal	oft	immer
1. ... hat mein Kind sich gut mit uns als Eltern verstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hat mein Kind sich zu Hause wohl gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hatten wir schlimmen Streit zu Hause	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... fühlte mein Kind sich durch mich bevormundet	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

5. Freunde

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manchmal	oft	immer
1. ... hat mein Kind mit Freunden gespielt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... ist mein Kind bei anderen „gut angekommen“	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hat mein Kind sich gut mit seinen Freunden verstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hatte mein Kind das Gefühl, daß es anders ist als die anderen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

6. Vorschule / Kindergarten

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manchmal	oft	immer
1. ... hat mein Kind die Aufgaben in der Vorschule/ im Kindergarten gut geschafft	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hat meinem Kind die Vorschule/ der Kindergarten Spaß gemacht	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hat mein Kind sich auf die Vorschule/ den Kindergarten gefreut	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hat mein Kind bei kleineren Aufgaben oder Hausaufgaben viele Fehler gemacht	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>


7. Weitere wichtige Fragen

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... war mein Kind schlecht gelaunt und quengelig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hat mein Kind mit Appetit gegessen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... konnte ich geduldig und verständnisvoll mit meinem Kind umgehen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... war mein Kind angestrengt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
5. ... konnte mein Kind gut schlafen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
6. ... ist mein Kind viel herumgetobt und hat sich bewegt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
7. ... hat mein Kind schnell geweint	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
8. ... war mein Kind fröhlich und gut gelaunt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
9. ... konnte sich mein Kind gut konzentrieren und war aufmerksam	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
10. ... ließ sich mein Kind leicht ablenken und war zerstreut	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
11. ... war mein Kind gern mit anderen Kindern zusammen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
12. ... habe ich mit meinem Kind geschimpft	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
13. ... habe ich mein Kind gelobt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
14. ... hatte mein Kind Schwierigkeiten mit Lehrern, Kindergärtnerinnen oder anderen Betreuungspersonen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
15. ... war mein Kind nervös und zappelig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
16. ... war mein Kind frisch und munter	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
17. ... hat mein Kind wegen Schmerzen gejamert	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
18. ... war mein Kind kontaktfreudig	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
19. ... klappte alles, was mein Kind anging	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
20. ... war mein Kind schnell unzufrieden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
21. ... hat mein Kind heftig geweint	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
22. ... wurde mein Kind leicht wütend	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Vielen Dank für Ihre Mitarbeit!

6.2.2 Kid_KiddoKINDL® 7-14 Jahre

ID: _____

<p>Fragebogen zur Lebensqualität von Kindern & Jugendlichen</p> <p>Kid- und Kiddo-KINDL[®] Elternversion</p> 

Sehr geehrte Mutter, sehr geehrter Vater,

vielen Dank, dass Sie sich bereit erklärt haben, diesen Bogen zum Wohlbefinden und zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität Ihres Kindes auszufüllen.

Bitte beachten Sie beim Beantworten der Fragen folgende Hinweise.

- ⇒ Lesen Sie bitte jede Frage genau durch,
- ⇒ überlegen Sie, wie Ihr Kind sich in der letzten Woche gefühlt hat,
- ⇒ kreuzen Sie **in jeder Zeile** die Antwort an, die für Ihr Kind am besten zutrifft.

Ein Beispiel: 					
In der letzten Woche ...	nie	selten	manch- mal	oft	immer
... hat mein Kind gut geschlafen.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Mein Kind ist ein: Mädchen Junge

Alter des Kindes: ____ Jahre

Sie sind: Mutter Vater Sonstiges: _____

Ausfülldatum: __ / __ / __ (Tag / Monat / Jahr)

1. Körperliches Wohlbefinden

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... hat mein Kind sich krank gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hatte mein Kind Kopfschmerzen oder Bauchschmerzen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... war mein Kind müde und schlapp	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hatte mein Kind viel Kraft und Ausdauer	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

2. Seelisches Wohlbefinden

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... hat mein Kind viel gelacht und Spaß gehabt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hatte mein Kind zu nichts Lust	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hat mein Kind sich allein gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hat mein Kind sich ängstlich oder unsicher gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

3. Selbstwert

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... war mein Kind stolz auf sich	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... fühlte mein Kind sich wohl in seiner Haut	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... mochte mein Kind sich selbst leiden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hatte mein Kind viele gute Ideen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

4. Familie

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... hat mein Kind sich gut mit uns als Eltern verstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hat mein Kind sich zu Hause wohl gefühlt	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hatten wir schlimmen Streit zu Hause	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... fühlte mein Kind sich durch mich bevormundet	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

5. Freunde

<i>In der letzten Woche ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... hat mein Kind etwas mit Freunden zusammen gemacht	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... ist mein Kind bei anderen „gut angekommen“	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hat mein Kind sich gut mit seinen Freunden verstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hatte mein Kind das Gefühl, dass es anders ist als die anderen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

6. Schule/Ausbildung

<i>In der letzten Woche, in der mein Kind in der Schule/Ausbildung war, ...</i>	nie	selten	manch- mal	oft	immer
1. ... hat mein Kind die Aufgaben in der Schule/Ausbildung gut geschafft	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... hat meinem Kind der Unterricht Spaß gemacht	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... hat mein Kind sich Sorgen um seine Zukunft gemacht	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... hatte mein Kind Angst vor schlechten Noten	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Vielen Dank für Ihre Mitarbeit!

7 Literaturverzeichnis

- Akbarnia BA, Cheung K, Noordeen H, Elsebaie H, Yazici M, Dannawi Z, Kabirian N (2013): Next generation of growth-sparing techniques: Preliminary clinical results of a magnetically controlled growing rod in 14 patients with early-onset scoliosis. *Spine* 38, 665–670
- Altaf F, Gibson A, Dannawi Z, Noordeen H (2013): Adolescent idiopathic scoliosis. *BMJ* 346, 2508
- Amelung PDVE. <https://wirtschaftslexikon.gabler.de/definition/gesundheitsbezogene-lebensqualitaet-51754/version-274909>; Zugriff am 06.10.2019
- Aslan C, Olgun ZD, Ertas ES, Ozusta S, Demirkiran G, Unal F, Yazici M (2017): Psychological profile of children who require repetitive surgical procedures for early onset scoliosis: Is a poorer quality of life the cost of a straighter spine? *Spine Deform* 5, 334–341
- Bekmez S, Dede O, Yazici M (2017): Advances in growing rods treatment for early onset scoliosis: *Curr Opin Pediatr* 29, 87–93
- Bekmez S, Afandiyev A, Dede O, Karaismailoğlu E, Demirkiran HG, Yazici M (2019): Is magnetically controlled growing rod the game changer in early-onset scoliosis? A preliminary report: *J Pediatr Orthop* 39, 195–200
- Bernstein P, Seifert J (2015): Die Skoliose im Wachstumsalter. *Orthop Unfallchirurgie Up2date* 10, 259–276
- Bess S, Akbarnia BA, Thompson GH, Sponseller PD, Shah SA, El Sebaie H, Boachie-Adjei O, Karlin LI, Canale S, Poe-Kochert C, Skaggs DL (2010): Complications of growing-rod treatment for early-onset scoliosis: Analysis of one hundred and forty patients. *J Bone Jt Surg Am Vol* 92, 2533–2543
- BMI Rechner Kinder & Jugendliche. <https://www.bmi-rechner.net/bmi-kinder.htm#tabelle>; Zugriff am 05.04.2020
- Bullinger M, Ravens-Sieberer U (2006): Lebensqualität und chronische Krankheit: die Perspektive von Kindern und Jugendlichen in der Rehabilitation. *Quality of life and chronic conditions: The perspective of children and adolescents in rehabilitation. Praxis der Kinderpsychologie und Kinderpsychiatrie* 55, 23-35
- Bullinger M, Blome C, Sommer R, Lohrberg D, Augustin M (2015): Gesundheitsbezogene Lebensqualität – ein zentraler patientenrelevanter Endpunkt in der Nutzenbewertung medizinischer Maßnahmen. *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz* 58, 283–290
- Campbell RM (2013): VEPTR: past experience and the future of VEPTR principles. *Eur Spine J* 22, 106–117
- Campbell RM, Smith MD, Mayes TC, Mangos JA, Willey-Courand DB, Kose N, Pinerio RF, Alder ME, Duong HL, Surber JL (2003): The characteristics of thoracic insufficiency syndrom associated with fused ribs and congenital scolioses. *J Bone Jt Surg Am Vol* 85, 399–408
- Carstens C (1999): Die neuromuskuläre Skoliose. *Orthop* 28, 622–633
- Cheung JPY, Cheung PWH, Wong CKH, Samartzis D, Luk KDK, Lam CLK, Cheung KMC (2016): Psychometric validation of the traditional chinese version of the early onset scoliosis-24 item questionnaire (EOSQ-24). *Spine* 41, 1460–1469

- Cheung KMC, Cheung JPY, Samartzis D, Mak KC, Wong YW, Cheung WY, Akbarnia BA, Luk KDK (2012): Magnetically controlled growing rods for severe spinal curvature in young children: a prospective case series. *The Lancet* 379, 1967–1974
- Cobb JR (1948): Outlines for the study of scoliosis. *Am Acad Orthop Surg* 261–275
- Cunin V (2015): Early-onset scoliosis – Current treatment. *Orthop Traumatol Surg Res* 101, 109–118
- Daig I, Lehmann A (2007): Verfahren zur Messung der Lebensqualität. *Z Med Psychol* 16, 5–23
- Dede O, Demirkiran G, Yazici M (2014): 2014 Update on the ‘growing spine surgery’ for young children with scoliosis: *Curr Opin Pediatr* 26, 57–63
- del Mar Pozo-Balado M, Matsumoto H, Vitale MG, Praena-Fernández JM, Farrington DM (2016): Reliability and validity of the adapted spanish version of the early-onset scoliosis-24 questionnaire: *Spine* 41, 625–631
- Demirkiran HG, Kinikli Gİ, Olgun ZD, Kamaci S, Yavuz Y, Vitale MG, Yazici M (2015): Reliability and validity of the adapted turkish version of the early-onset scoliosis-24-item questionnaire (EOSQ-24). *J Pediatr Orthop* 35, 804–809
- Doany ME, Olgun ZD, Kinikli GI, Bekmez S, Kocyigit A, Demirkiran G, Karaagaoglu AE, Yazici M (2018): Health-related quality of life in early-onset scoliosis patients treated surgically: EOSQ scores in traditional growing rod versus magnetically controlled growing rods. *Spine* 43, 148–153
- Dubach P, Oesch T, Künzi K, Goumard D (Hrsg): *Krebs und prekäre Lebensverhältnisse*, Bern: Büro für arbeits- und sozialpolitische Studien BASS AG, 2009
- Ellert U, Brettschneider A-K, Ravens-Sieberer U, KiGGS Study Group (2014): Gesundheitsbezogene Lebensqualität bei Kindern und Jugendlichen in Deutschland: Ergebnisse der KiGGS-Studie – Erste Folgebefragung (KiGGS Welle 1). *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz* 57, 798–806
- Erol B, Tracy MR, Dormans JP, Zackai EH, Maisenbacher MK, O’Brien ML, Turnpenny PD, Kusumi K (2004): Congenital scoliosis and vertebral malformations. *J Pediatr Orthop* 24, 9
- Fekete TF, Haschtmann D, Heyde C-E, Kleinstück F, Jeszenszky D (2016): Kongenitale Fehlbildungen der Wirbelsäule im Wachstum: Wann konservativ behandeln, wann operativ? *Orthop* 45, 518–526
- Fernandes P, Weinstein SL (2007): Natural history of early onset scoliosis. *J Bone Jt Surg Am Vol* 89, 21-33
- Flynn JM, Matsumoto H, Torres F, Ramirez N, Vitale MG (2012): Psychological dysfunction in children who require repetitive surgery for early onset scoliosis. *J Pediatr Orthop* 32, 594–599
- Frimberger V (2019): Skoliose bei mehrfach behinderten Kindern und Jugendlichen. *Monatsschr Kinderheilkd* 167, 696–703
- Groenefeld B, Hell AK (2013): Ossifications after vertical expandable prosthetic titanium rib treatment in children with thoracic insufficiency syndrome and scoliosis. *Spine* 38, 819–823
- Haaker G, Fujak A (2013): Proximal spinal muscular atrophy: current orthopedic perspective. *Appl Clin Genet* 6, 113–120

- Hagengruber A, Vogel J (2018): Functional tasks performed by people with severe muscular atrophy using an sEMG controlled robotic manipulator. *Conf Proc IEEE Eng Med Biol Soc* 2018, 1713–1718
- Haraldstad K, Christophersen K-A, Helseth S (2017): Health-related quality of life and pain in children and adolescents: a school survey. *BMC Pediatr* 17, 174
- Harding L (2001): Children's quality of life assessments: A review of generic and health related quality of life measures completed by children and adolescents. *Clin Psychol Psychother* 8, 79–96
- Harrington P (1962): Treatment of scoliosis: Correction and internal fixation by spine instrumentation. *J Bone Jt Surg* 44, 591–634
- Hecht C, Weber M, Grote V, Daskalou E, Dell'Era L, Flynn D, Gerasimidis K, Gottrand F, Hartman C, Hulst J, et al. (2015): Disease associated malnutrition correlates with length of hospital stay in children. *Clin Nutr* 34, 53–59
- Hefti F (2002): Kongenitale Fehlbildungen an der Wirbelsäule. *Orthopäde* 31, 34-43
- Hell AK, Hefti F, Campbell RM (2004): Behandlung der kongenitalen Skoliose mit dem Vertical-expandable-prosthetic-titanium-rib-Implantat. *Orthopäde* 33, 911–918
- Hell AK, Campbell RM, Hefti F (2005): Neues Therapiekonzept für Kinder mit Thoraxinsuffizienz-Syndrom aufgrund von Wirbelsäulenfehlbildungen. *Klin Pädiatr* 217, 268–273
- Hell AK, Groenefeld K, Tsaknakis K, Braunschweig L, Lorenz HM (2018): Combining bilateral magnetically controlled implants inserted parallel to the spine with rib to pelvis fixation: Surgical technique and early results. *Clin Spine Surg* 31, 239–246
- Hell AK, Braunschweig L, Behrend J, Lorenz HM, Tsaknakis K, von Deimling U, Mladenov K (2019): Health-related quality of life in early-onset-scoliosis patients treated with growth-friendly implants is influenced by etiology, complication rate and ambulatory ability. *BMC Musculoskelet Disord* 20, 588
- Hensinger RN (2009): Congenital scoliosis: Etiology and associations. *Spine* 34, 1745–1750
- Hershman SH, Park JJ, Lonner BS (2013): Fusionless surgery for scoliosis. *Bull Hosp Jt Dis.* 71, 49-53
- Heuschen UA, Heuschen G, Lucas M, Hinz U, Stern J, Herfarth C (1998): Prä- und postoperative Lebensqualität von Patienten mit Colitis ulcerosa und familiärer adenomatöser Polyposis bei ileoanaler Pouchoperation. *Chirurg* 69, 1329–1333
- Hickey BA, Towriss C, Baxter G, Yasso S, James S, Jones A, Howes J, Davies P, Ahuja S (2014): Early experience of MAGEC magnetic growing rods in the treatment of early onset scoliosis. *Eur Spine J* 23, 61–65
- Hsu P-C, Feng C-K, Huang S-H, Chiu J-W, Chou C-L, Yang T-F (2019): Health-related quality of life in children and adolescent with different types of scoliosis: A cross-sectional study. *J Chin Med Assoc* 82, 161–165
- Jiao F, Wong CKH, Gangwani R, Tan KCB, Tang SCW, Lam CLK (2017): Health-related quality of life and health preference of Chinese patients with diabetes mellitus managed in primary care and secondary care setting: decrements associated with individual complication and number of complications. *Health Qual Life Outcomes* 15, 125

- Kane RL (Hrsg.): Understanding health care outcomes research. 2. Auflage; Jones and Bartlett, Sudbury, Mass 2006
- Karol LA (2019): The natural history of early-onset scoliosis. *J Pediatr Orthop* 39, 38
- Klemme WR, Denis F, Winter RB, Lonstein JW, Koop SE (1997): Spinal instrumentation without fusion for progressive scoliosis in young children. *J Pediatr Orthop* 17, 734–742
- Kohl S, Strauss B (Hrsg): Diagnostische Verfahren zu Lebensqualität und subjektivem Wohlbefinden. Springer, Berlin/Heidelberg 2010, 241–251
- Koletzko B, Dokoupil K, Koletzko S (2016): Gedeihstörung und Untergewicht bei kindlichen Erkrankungen. *Monatsschr Kinderheilkd* 164, 19–30
- Korinthenberg R, Zerres K, Rudnik-Schöneborn S (2005): Spinale Muskelatrophie. Management of neuromuscular diseases, Letter Nr. 31
- Körner I, Schlüter C, Lax H, Rübber H, Radmayr C (2006): Gesundheitsbezogene Lebensqualität bei Kindern mit Spina bifida. *Urol* 45, 620–625
- Kouwenhoven JWM (Hrsg): The role of intrinsic spinal mechanisms in the pathogenesis of adolescent idiopathic scoliosis. 1. Auflage; Utrecht University 2007
- Krause L, Ellert U, Kroll LE, Lampert T (2014): Gesundheitsbezogene Lebensqualität von übergewichtigen und adipösen Jugendlichen: Welche Unterschiede zeigen sich nach Sozialstatus und Schulbildung? *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz* 57, 445–454
- Lim CS, Espil FM, Viana AG, Janicke DM (2015): Associations between anxiety symptoms and child and family factors in pediatric obesity. *J Dev Behav Pediatr* 36, 664–672
- Lorenz HM, Badwan B, Hecker MM, Tsaknakis K, Groenefeld K, Braunschweig L, Hell AK (2017): Magnetically controlled devices parallel to the spine in children with spinal muscular atrophy: *JBS Open Access* 2, 0036
- Lorenz HM, Braunschweig L, Eberhardt IM, Tsaknakis K, Hell A -K. (2019): Operative „No-touch“-Techniken zur Korrektur kindlicher Skoliosen. *Oper Orthop Traumatol* 31, 321–334
- Matsumoto H, Yoshimachi JY, Roye BD, Roye DP, Akbarnia BA, Emans J, Vitale MG (2016): The final 24-item early onset scoliosis questionnaires (EOSQ-24): Validity, reliability and responsiveness. *J Pediatr Orthop* 00, 8
- Matsumoto H, Williams B, Park HY, Yoshimachi JY, Roye BD, Roye DP, Akbarnia BA, Emans J, Skaggs D, Smith JT, Vitale MG (2018): The final 24-item early onset scoliosis questionnaires (EOSQ-24): Validity, reliability and responsiveness. *J Pediatr Orthop* 38, 144–151
- Matussek J, Dingeldey E, Wagner F, Rezai G, Nahr K (2014): Konservative Therapie der idiopathischen Skoliose mit dem Korsett: Hohe Korrekturraten bei frühzeitiger Beobachtung und Behandlung der Rumpfasymmetrie. *Orthop* 43, 689–702
- Matussek J, Dingeldey E, Benditz A, Rezai G, Nahr K (2015a): Konservative Behandlung der idiopathischen Skoliose: Beeinflussung der Rumpfasymmetrie mit Cheneau-Korsettarchetypen. *Orthop* 44, 869–878
- Matussek J, Benditz A, Dingeldey E, Völlner F, Boluki D (2015b): Operative Behandlung der Skoliose im Kindes- und Jugendalter: Differenzialindikation und Verfahrenswahl bei verschiedenen Altersgruppen und in Abhängigkeit der Ätiologie. *Orthop* 44, 577–594

- Maydick-Youngberg D A (2017): Descriptive study to explore the effect of peristomal skin complications on quality of life of adults with a permanent ostomy. *Ostomy wound management* 63, 10–23
- Mayer OH (2009): Management of thoracic insufficiency syndrome: *Curr Opin Pediatr* 21, 333–343
- McHorney CA, Ware JE, Lu JFR, Sherbourne CD (1994): The MOS 36-item short-form health survey (SF-36): III. tests of data quality, scaling assumptions, and reliability across diverse patient groups. *Med Care* 32, 40–66
- McMaster M (1983): Infantile idiopathic scoliosis: can it be prevented? *J Bone Joint Surg Br* 65, 612–617
- McMaster MJ (1998): Congenital scoliosis caused by a unilateral failure of vertebral segmentation with contralateral hemivertebrae. *Spine* 23, 998–1005
- McMaster MJ, Ohtsuka K (1982): The natural history of congenital scoliosis. A study of two hundred and fifty-one patients.: *J Bone Jt Surg* 64, 1128–1147
- Meade T, Dowswell E (2015): Health-related quality of life in a sample of Australian adolescents: gender and age comparison. *Qual Life Res* 24, 2933–2938
- Michel G, Bisegger C, Fuhr DC, Abel T, The KIDSCREEN group (2009): Age and gender differences in health-related quality of life of children and adolescents in Europe: a multilevel analysis. *Qual Life Res* 18, 1147–1157
- Mladenov K, Braunschweig L, Behrend J, Lorenz HM, von Deimling U, Hell AK (2019): Validation of the german version of the 24-item early-onset scoliosis questionnaire. *J Neurosurg Pediatr* 23, 688–693
- Moe JH, Kharrat K, Winter RB, Cummine JL (1984): Harrington instrumentation without fusion plus external orthotic support for the treatment of difficult curvature problems in young children. *Clin Orthop* 185, 35–45
- Molland RS, Diep LM, Brox JI, Stuge B, Holm I, Kibsgard TJ (2018): Reliability and construct validity of the adapted norwegian version of the early-onset scoliosis 24-item questionnaire. *JAAOS Glob Res Rev* 2, 066
- Morfeld M, Bullinger M (2008): Der SF36 Health Survey zur Erhebung und Dokumentation gesundheitsbezogener Lebensqualität. *Phys Med Rehabil Kurortmed* 18, 250–255
- Negrini S, Donzelli S, Aulisa AG, Czaprowski D, Schreiber S, de Mauroy JC, Diers H, Grivas TB, Knott P, Kotwicki T, et al. (2018): 2016 SOSORT guidelines: orthopaedic and rehabilitation treatment of idiopathic scoliosis during growth. *Scoliosis Spinal Disord* 13, 3
- Odent T, Ilharreborde B, Miladi L, Khouri N, Violas P, Ouellet J, Cunin V, Kieffer J, Kharrat K, Accadbled F (2015): Fusionless surgery in early-onset scoliosis. *Orthop Traumatol Surg Res* 101, 281–288
- Petersen C, Nordmeyer S, Müller-Godeffroy E, Foeldvari I, Küster R-M, Bullinger M, Group null D (2008): Gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen mit juveniler idiopathischer Arthritis: Welche Rolle spielen Alter, Geschlecht und medizinische Parameter? *Klin Pädiatr* 220, 259–265
- Plaass C, Hasler CC, Heining U, Studer D (2016): Bacterial colonization of VEPTR implants under repeated expansions in children with severe early onset spinal deformities. *Eur Spine J* 25, 549–556

- Putzier M, Groß C, Zahn RK, Pumberger M, Strube P (2016): Besonderheiten neuromuskulärer Skoliosen. *Orthop* 45, 500–508
- Radl R, Maafe M, Ziegler S (2011): Skoliose: Die krumme Wirbelsäule. *Orthop* 40, 449–462
- Radoschewski M (2000): Gesundheitsbezogene Lebensqualität - Konzepte und Maße. *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz* 43, 165–189
- Ravens-Sieberer U (2000): Verfahren zur Erfassung der gesundheitsbezogenen Lebensqualität bei Kindern und Jugendlichen. *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz* 43, 198–209
- Ravens-Sieberer U, Görtler E, Bullinger M (2000): Subjective health and health behavior of children and adolescents - a survey of Hamburg students within the scope of school medical examination. *Gesundheitswesen Bundesverb Ärzte Öffentlichen Gesundheitsdienstes Ger* 62, 148–155
- Ravens-Sieberer U, Gosch A, Abel T, Auquier P, Bellach B-M, Bruil J, Dür W, Power M, Rajmil L, the European KIDSCREEN Group (2001): Quality of life in children and adolescents: a European public health perspective. *Soz- Präventivmedizin* 46, 294–302
- Ravens-Sieberer U, Ellert U, Erhart M (2007): Gesundheitsbezogene Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen in Deutschland: Eine Normstichprobe für Deutschland aus dem Kinder- und Jugendgesundheitsurvey (KIGGS). *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz* 50, 810–818
- Reinehr T (2011): Praktische Umsetzungen von Therapieempfehlungen zur Adipositas bei Kindern und Jugendlichen. *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz* 54, 591–597
- Ridderbusch K, Rupprecht M, Kunkel P, Stücker R (2013): Nonfusionstechniken zur Behandlung der kindlichen Skoliose. *Orthop* 42, 1030–1037
- Ridderbusch K, Spiro AS, Kunkel P, Grolle B, Stücker R, Rupprecht M (2018): Strategies for treating scoliosis in early childhood. *Dtsch Arzteblatt* 115, 371–376
- Risser JC (1955): The application of body casts for the correction of scoliosis. *Instr Course Lect* 12, 255–259
- Sankar WN, Skaggs DL, Yazici M, Johnston CEI, Shah SA, Javidan P, Kadakia RV, Day TF, Akbarnia BA (2011): Lengthening of dual growing rods and the law of diminishing returns. *Spine* 36, 806–809
- Schulze A, Schradung S, Betsch M, Quack V, Tingart M (2015): Skoliose im Wachstumsalter: Von der Deformität zur Therapie. *Orthop* 44, 836–844
- Schumacher J, Klaiberg A, Brähler E: Diagnostik von Lebensqualität und Wohlbefinden—Eine Einführung. In: *Diagnostische Verfahren zu Lebensqualität und Wohlbefinden*. Göttingen: Hogrefe. 2003, 9–24
- Şeker Abanoz E, Özmen M, Çalışkan M, Gökçay G, Aydın N (2019): Ambulation, lesion level, and health-related quality of life in children with myelomeningocele. *Childs Nerv Syst* 36, 611–616
- Smith JT, Campbell RM (2012): Magnetically controlled growing rods for spinal deformity. *The Lancet* 379, 1930–1931

- Stücker R (2010): Die idiopathische Skoliose. *Orthop Unfallchirurgie Up2date* 5, 39–56
- Stücker R, Hasler C (Hrsg): Die wachsende Wirbelsäule. 1. Auflage; Walter de Gruyter GmbH Berlin/Boston, 2017
- Telci EA, Yazar F, Cavlak U, Atalay OT (2018): Comparison of musculoskeletal pain distribution, quality of life and hopelessness level in mothers with disabled children in different ambulation levels. *J Back Musculoskelet Rehabil* 31, 305–313
- Tsaknakis K, Braunschweig L, Lorenz HM, Hell AK (2020): Anspruch und Wirklichkeit bei der Korsettbehandlung: Primärkorrektur bei Skoliosen im Kindes- und Jugendalter. *Orthop* 49, 59–65
- Vitale MG, Matsumoto H, Roye DP, Gomez JA, Betz RR, Emans JB, Skaggs DL, Smith JT, Song KM, Campbell RM (2008): Health-related quality of life in children with thoracic insufficiency syndrome. *J Pediatr Orthop* 28, 239–243
- Wagner L, Braunschweig L, Eiffert H, Tsaknakis K, Kamin D, D'Este E, Messer PK, Hell AK, Lorenz HM (2017): Detection of bacteria colonizing titanium spinal implants in children. *Surg Infect* 19, 71–77
- Wijidicks SPJ, Dompeling SD, de Reuver S, Kempen DHR, Castelein RM, Kruyt MC (2019): Reliability and validity of the adapted dutch version of the early-onset scoliosis-24-item questionnaire (EOSQ-24). *Spine* 44, 965–973
- Wimmer C, Wallnoefer P, Pfandlsteiner T (2010): Die operative Behandlung von Skoliosen mit dem „vertical expandable prosthetic titanium rib“ (VEPTR). *Oper Orthop Traumatol* 22, 123–136
- Winter RB, Lonstein JE (2010): Scoliosis secondary to a hemivertebra: Seven patients with gradual improvement without treatment. *Spine* 35, 49–52
- Wong H-K, Hui JHP, Rajan U, Chia H-P (2005): Idiopathic scoliosis in singapore schoolchildren: A prevalence study 15 years into the screening program. *Spine* 30, 1188–1196
- Wynne-Davies R. (1968): Familial (idiopathic) scoliosis. A family survey. *J Bone Joint Surg Br.* 50, 24-30.
- Zeller R (2000): Neuromuskuläre Skoliosen. *Orthop* 29, 518–523

Danksagung

Mein Dank gilt Frau Prof. Dr. med. Anna-Kathrin Hell, durch die ich die Möglichkeit zur Anfertigung dieser Dissertation erhalten habe. Für die verlässliche Unterstützung und die motivierenden Gespräche möchte ich mich besonders bedanken.

Ganz herzlich danke ich ebenfalls Herrn Priv. Doz. Dr. med. Heiko Lorenz sowie Herrn Dr. med. Konstantinos Tsaknakis für die bereitwillige Mithilfe bei der Durchführung der Studie.

Frau Dr. rer. nat. Lena Braunschweig gebührt mein besonderer Dank für die geduldige und kompetente Betreuung über den gesamten Zeitraum der Erstellung dieser Arbeit. Für die tatkräftige Mithilfe, die wissenschaftliche und persönliche Unterstützung sowie das mühevoll Korrekturlesen möchte ich mich bedanken.

Darüber hinaus gilt mein Dank allen Mitarbeitern der Kinderorthopädie der Universitätsmedizin Göttingen sowie allen Studienteilnehmern für ihre bereitwillige Kooperation.