

UNIVERSITÄTSKLINIKUM HAMBURG-EPPENDORF

Klinik für Pädiatrische Hämatologie und Onkologie

Prof. Dr. Stefan Rutkowski

Elterlicher Umgang mit Diffus Intrinsischem Ponsgliom des Kindesalters

Dissertation

zur Erlangung des Grades eines Doktors der Medizin
an der Medizinischen Fakultät der Universität Hamburg

vorgelegt von:

Kalinka Radlanski
aus Göttingen

Hamburg 2022

**Angenommen von der
Medizinischen Fakultät der Universität Hamburg am:
04.04.2023**

**Veröffentlicht mit Genehmigung der
Medizinischen Fakultät der Universität Hamburg.**

Prüfungsausschuss, der/die Vorsitzende:
Prof. Dr. Silke Wiegand-Grefe

Prüfungsausschuss, zweite/r Gutachter/in:
PD Dr. Uwe Kordes

Inhaltsverzeichnis

Inhaltsverzeichnis	3
1. Publikation.....	4
2. Darstellung der Publikation.....	25
<i>Einleitung.....</i>	<i>25</i>
<i>Fragestellung.....</i>	<i>27</i>
<i>Methodik.....</i>	<i>28</i>
<i>Ergebnisse.....</i>	<i>29</i>
Deduktive Kategorien.....	30
Induktive Kategorien zur Krankheitsbewältigung.....	32
Induktive Kategorien zur elterlichen Trauer.....	33
<i>Diskussion.....</i>	<i>34</i>
<i>Ausblick und Schlussfolgerung.....</i>	<i>36</i>
3. Zusammenfassung.....	38
4. Anhang.....	40
5. Literaturverzeichnis.....	48
6. Erklärung des Eigenanteils.....	50
7. Danksagung.....	51
8. Lebenslauf.....	52
9. Eidesstattliche Erklärung	53

1. Publikation

Radlanski et al., Coping with Diffuse Intrinsic Pontine Glioma in Children – Findings from an Interview Study on Bereaved Parents. Klin Padiatr 2022 Nov;234(6):374-381

Coping with Diffuse Intrinsic Pontine Glioma in Children – Findings from an Interview Study on Bereaved Parents

Elterlicher Umgang mit Diffus Intrinsischem Ponsgliom des Kindesalters

Keywords

- Diffuse intrinsic pontine glioma
- Palliative care
- End-of-life care
- Bereavement
- Communication

Schlüsselwörter

- Diffus Intrinsisches Ponsgliom
- Palliative care
- End-of-life
- Trauerbewältigung
- Kommunikation

Introduction

Diffuse intrinsic pontine glioma (DIPG) in children has a high mortality and a median overall survival at less than a year. [12, 16] In the WHO 2016 classification it belongs to the newly defined entity of diffuse midline glioma, H3 K27M mutant. Standard treatment by a multi-disciplinary team includes up-front fractionated radiotherapy. Current protocols evaluate different additions of systemic or local chemotherapy, biologicals and targeted therapies. [12, 6] In general, adjuvant therapy rises the mean overall survival from five to only nine months. [21]

Diagnosis of DIPG should prompt a consultation with the palliative care team. Palliative care addresses easing the child's suffering as well as the parents' coping during their child's illness and into their bereavement. In order to strengthen pre-existing resources, it is advised to work in a family-orientated and individually adaptive psychosocial way. [26]

Palliative medicine research in the last decades has shown that it is possible for parents to strengthen and even benefit from the terrifying experience of losing a child. For example, parents are able to appreciate the shift of priorities their child has taught them by dying. [25] Key factors in parental coping of bereavement are: A strong and positive relationship with the child, [13] personal support by life partners/spouses [25], professional (i. e. medical and or psychological) support [20] as well as humanity, empathy and acknowledgement of being special to professionals. Once parents become certain of the incurability of their child's disease, they can learn to transform initial hope for cure into a new, more realistic and more beneficial perspective of hope. This can be either hope for a short end-of-life phase, or for less suffering or a peaceful death. [13, 22, 30] Furthermore, being able to make

sense of their child's death can be beneficial. For example, parents have shown a remarkable willingness to consent to post-mortem research. [2, 7, 14]

Following the historical debate summarized under the catchphrase "to tell or not to tell", it has become well known and broadly accepted by researchers that open communication about death is beneficial for both the dying children and the surviving parents. [5, 17, 22, 29, 30] Professionals agree on recommending parents to address this topic with their children but in common practice, it is only rarely performed. [1] Parents who avoid open communication about death with their child are at risk for pathological grief. In particular, they regret to have left their child alone with its fears and sorrows and did not give them a safe space for emotions during the experience of dying. These reproaches cause great discomfort and prolonged bereavement. [17, 30] Communication between a professional and her severely ill patient is a significant professional, ethical and human challenge. [13] Despite the many helpful theoretical guidelines there is still a considerable need for further education and training. Professionals often have the feeling of entering an "ethical no man's land" and have to improvise. [23] Nevertheless, „effective communication with parents under these circumstances is always difficult and may fail even in skilled hands.“ [28]

This study was designed to generate case reports based on retrospective narratives by parents confronted with DIPG. This tumor was selected because of its often all-time present inevitable end-of-life character during its whole course. We aim to discover principal themes and differences in the parents' experiences with this disease. Furthermore, we determine specific family needs from the parental perspective as well as elucidate typical problems in interaction between families and care givers at three designated time points during the disease using a single retrospective interview after

the child has passed. The results lead to recommendations for existing supportive treatment concepts and is applicable for other pediatric oncological diagnoses.

Methods

Ethics approval for this study was granted by the local ethics committee (PV5246) and written and/or oral consent was obtained by all participants. The study and interviews were developed and conducted by KR as part of her medical thesis, supervised by a pediatrician (MH) specialized in pediatric hematology and oncology and in palliative care.

A problem-oriented guided interview was chosen aiming to collect personal perceptions and intellectual processing as unbiased as possible. To this end the FAMCARE-2 questionnaire was used [3, 4, 27] with slight modifications to match specific requirements of this study and kind permission by Samar Aoun. Part A of the questionnaire collects demographic data on sociocultural background of the families, Part B explores the parent's perceptions regarding management of physical symptoms and support, provision of information, family support and patient psychological care (see supplement). The questions were used as a memory aid and framework during the conduction of the single retrospective interview and repeatedly asked for each key time point during DIPG: diagnosis, at time of clinical/neuroradiological progression and at the time of death. Thus, a comparison of cases despite the different life histories and characters in individual families was possible.

Parents with a child treated for DIPG at our Center between 1999 and 2015 and residence in the wider city area were eligible for participant selection. A total of 24 families were identified and contacted by letter, inquiring whether they would wish to receive further information about this interview study. Eleven of these letters could not be delivered. For four of the 13 remaining families, no telephone

number was available. A telephone call was then conducted with nine families. In two cases parents declined. A personal appointment took place with both parents in six cases and with only the mother in one case. Each family was assigned with a random number from 1 to 7 and each parent additionally labeled with “a” for a mother and “b” for a (step)father.

One patient whose tumor was diagnosed incidentally was treated with best supportive care, all others received primary therapy according to HIT HGG 2007, salvage treatment included Nimotuzumab in two and re-irradiation in one patient (see table 1 for details on tumor treatment and time points of interviews). In July and August 2016, 13 interviews with parents with seven mothers (#1a-#7a), five fathers (#1b-#5b) and one step father (#6b) of seven children who deceased due to DIPG between 2009 and 2014 were conducted. Parents were interviewed separately. In only one case, both parents including their next-born (toddler) child were in the room together for parts of the interview and answered some questions together (#4). The setting was chosen by parents: Data were collected at home (#3, #4, #5, #6), at the clinic (#1), at palliative care office (#2) and at the parent’s workplace (#7). All parents were offered access to psycho-oncological support at the center, but none made use of it.

A first interview (#2b) was conducted by MH and KR together. The physician-family-relationship that had formed between interviewee and MH from the time of treatment interfered with the interview, however. The remaining 12 interviews were successfully conducted by KR alone.

All interviews were initiated with the stereotypic opening question: “I would like to start with the time of diagnosis. Would you like to tell me how everything started, how you noticed that there was something wrong with your child and how you found your way to the doctor?”

With participant consent, all interviews were audio-recorded on a portable mp3-device and transcribed [10] and all audio-records were deleted after transcription.

Subsequently we executed a qualitative content analysis as suggested by Mayring with the following operating steps [19, 18]:

1. determination of material to be analyzed
2. determination of dimension of structuring (content-driven)
3. structuring text and building of the category system
4. formulating definitions, key examples and coding rules for each category
5. first pass through material: labeling of categories
6. second pass through material: revision and editing of categories
7. editing, revision of category system and category definitions
8. editing of results

MAXQDA standard (VERBI Software, version MAXQDA 2020) was used for coding of transcript, performed by KR. Quality criteria were met using semantic and communicative validity. [19]

Results

The mean time span between death and interview was four years and three months. The duration of the interviews ranged from 22:07 minutes (#4b) to 01:26:31 hours (#5a), with a mean of 46:24 minutes. The length of transcripts ranged from eight (#4b) to 41 DIN A4 pages (#5a), with a mean of 17 pages.

The Likert scale of the questionnaire turned out to be a hindrance: Parents were hesitant to break down and reduce their narrative onto a certain item on the scale, as it appeared to not appreciate free speech and associations. Therefore, the Likert scale was not applied.

Demographic data are shown in table 1.

Quotations are presented to illustrate major themes.

1. The children's courses of disease (Fig. 1)

Mean overall survival was eight months and four days with a range from minimum 22 days (#3) to maximum 15 months and 20 days (#5). Palliative care was involved in five families. Two out-liers without palliative care occurred: one child (#3) died within 22 days after diagnosis, another one (#7) was diagnosed before palliative care had been established.

2. Deductive categories

Deductive and inductive categories were separated: All answers given to the pre-formulated subjects of the questionnaire were summarized under deductive categories. All other information obtained from further narration was categorized into inductive topics. That way, we were able to separate information to prove our hypothesis (deductive) from information that led to a new valuable hypothesis during the research progress (inductive).

For the primary themes, deductive categories were identified from the FAMCARE-2 questionnaire in advance.

All parents stated satisfaction and comfort regarding their received care, in particular management of physical symptoms and support, provision of information, family support and patient psychological care. In #3 death occurred from rapid progression within the first month after diagnosis. Final care was delivered in the hospital, without intervention by the dedicated palliative care team. Nevertheless, even this family stated overall satisfaction and gratitude towards most aspects of care.

Yes I can summarize that I have always felt in good hands with my child and I also had the feeling that whatever possible was done. Every possibility at that time was offered to my daughter. She even had a special bed in the end and I had the impression that it was not easy to get that. I also had the feeling that the doctors and nurses around us were really, really caring and tried their best and always reached out to talk to us: what can we do, what can we do better, had suggestions on what to do better, and the impulse always came from the staff. I found that incredibly wonderful. I can say that now, their work is really one of a kind. [...] I had the feeling that this was really, really, really good. (#3a)

In (#7) the palliative care team was not yet formally established. Her mother experienced lack of support:

Yes, I sometimes ask myself ... she was not treated with pain killers. [...] But I had no pain medication at home, sometimes I am still bemoaning, I am thinking: why, when she had these pain attacks, why was I not supplied with a pain killer that I could have given her for relief? I had to wait until it [the pain attack] was over. Later, when she was already dying, they [hospital staff] were way more generous with that, she was pumped up with morphium, but before..?

[interviewer]: You would have wished for someone to...

... talk to me about the pain, yes. Sometimes I think it would have been my duty to save her from this pain. I mean, these attacks never lasted long, but her screaming... when she... I can still hear her today... (#7a)

The poor symptom control of her daughter exemplifies one reason why this mother felt acutely helpless. She also states that this experience is prolonging her bereavement. Her other main complaint was the lack of care for her other child. Now these needs are addressed as part of basic palliative treatment plans.

Main negative category was “interdisciplinary communication”. Here, the wish for a continuity in help (“anchor person”) became evident:

When she [the primary palliative care physician] was on her well-deserved leave, different doctors were in charge. My son absolutely disliked having to talk to different doctors. When there was this new doctor and he had the huge medical record in front of him he still asked my son: “So, tell me, what’s going on?”. He was so fed up by this. I mean, my son is a very kind person, but he reacted like “no, I don’t care, I don’t want to talk to you anymore”. Yes, that was annoying. I had wished for more of a continuity there. [...] We felt like we were transferred from one island to another and on each place we had to start all over again from the very beginning. That was not good. Actually, that was the worst, regarding the personal support. (#5b)

3. Inductive categories during the disease

The parent's data on coping strategies, physical conditions, reaching out for support and disruptive elements during the whole course of disease are inductive categories. Most quotes concerning the child's coping strategies consisted of the child being notably self-determined and about their attempt to keep up their regular everyday life (table 2:1+2). Five parents talked in 12 quotes about their child's communication about death (table 2:3): most of the parents had the impression that their child itself did not want to talk about it, even when the parents approached that topic (table 2:3a). Two parents remembered situations where in retrospect they were sure their child wanted to talk about dying, but at that time the parent didn't understand or denied the child the communication (table 2:3b). Furthermore, parents noted a remarkable maturing process and bravery in their child (table 2:5) paired with a significant cheerfulness/light-heartedness (table 2:6).

Main coping aspects of the parents themselves were a neglect/functioning mode and the hope for a cure and also the acceptance of what was happening (table 2:14-16). Parents tried to keep up a positive attitude but at the same time felt overburdened (table 2:21-22). They found support as well as in religion/esoterics/spirituality, friends, and spouses (table 2:27-29). Two parents consulted a professional psychologist during the disease (table 2:30). Disruptive elements were experienced in (former) friendships, and within one marriage that later failed (table 2:34-35).

4. Inductive categories on parental bereavement

Parental bereavement strategies after their child's death also are important inductive categories. Those were split in coping strategies (table 3:1-6), issues that parents are still bemoaning (table 3:7-12) and

summaries such as outlooks, conclusions and statements from the actual bereavement point of view (table 3:13-19).

While evaluating the parents' statements about the persistent factors they are still bemoaning it emerges that all parents regret that they have not talked to their children about death. The inductive category "communication about death" contains most and most disturbing quotes (table 3:7). Parents state that this missed opportunity has the largest impact on parental bereavement and prolongs their suffering significantly. The following two quotes illustrate and emphasize the importance of this category.

In retrospect, for myself I wish I was more open with her about that she was dying or [...] but she appeared to be fine and I didn't want to spoil her spirit when she appeared to be so cheerful. But she let me know that she was aware. At least I interpret it like this. For example, she had painted a picture with angels and there were four flowers (the girl had a little brother), three stayed at the bottom and one was up in heaven. These were the kind of pictures she painted. And maybe I didn't want to see it at that time, but in retrospect I see it very clearly that in her mindset she had already been someplace else or that she already had made contact to what was approaching her.

[interviewer]: Has anybody talked to her? If you yourself did not talk concretely with her, do you know if [...] your husband or anyone has talked to her?

[...] I only know from my husband, that when she was already dying, he asked her if the angels had already come [sobs] I couldn't do it. I have thought a lot about it afterwards, if it had been right, because maybe she had felt it. That maybe if I had had the strength to talk further

with her. Yes, but somehow, because she was relatively fine, I just didn't do it. That's how it was. (#7a)

When he was extremely bad and I could not help him. And one time he said something to me and I didn't really react to it, I didn't understand. This is actually what still pains me the most. That I didn't do that. It was so rare that he approached us, that he told us what he wanted or not wanted, or what he was worrying about. And this one time, it could have been that he meant something. And I am not sure if I reacted right. And that's such a shame. I don't think that it was something he wanted me to do, but I believe he wanted to tell me something and I don't know what. About his condition, or what was happening next or so. It was towards the end, but anyways. (#5b)

In this study, out of seven children it was assumingly spoken openly to only one child. Two families remained in mutual pretense. Two children were actively prevented by their parents to have open communication. In two other cases the concept remains unclear.

Discussion

As a main finding of the study we demonstrate feasibility of conducting such an interview study in this design. The chosen problem-oriented guided interview was able to collect personal perceptions in an unbiased manner. In our experience, having a neutral third party perform such interviews is helpful, whereas presence of a former care-taker may be problematic. However, retrospective narratives proved to be of great value for our purpose. In this mono-institutional study we conducted all interviews with a consistent approach under reproducible circumstances. Our data show this was

possible for an interviewer, supervised by medical staff, even without psychological or psychotherapeutical training. This approach blends in with other recent laymen support trials like The Friendship Bench intervention in Zimbabwe where individual problem-solving therapy delivered by lay health workers proved to be an effective primary care-based management of common mental disorders. [8]

Our deductive data show that parents are overall less burdened when palliative care is involved in the treatment of their children's DIPG. Lack of support in families without palliative care are addressed in basic palliative treatment plans. The important role of the palliative care team at the interface between family and standard clinical care does also extend into research clinical projects.

Pohlkamp et al. [24] recently discovered the prevalence of parental prolonged grief, depression, posttraumatic stress and insomnia up to five years after losing a child. We noticed similar stress factors within our mean time span between death and interview of four years and three months (range two years and three months to seven years and five months). However, due to our research approach with the open interviews we also discovered quite positive outlooks: Most parents concluded that their experience of losing a child will never be coped, but they felt at peace with it (table 3:13) and six parents had the feeling that in retrospect, they basically did ok (table 3:14). Parents of dying children as well as bereaved parents also feel the need to make sense of their child's death. [14, 16] This study exemplifies that reaching out for them for research purposes can be beneficial, even after a long time: All participating parents of this study state that the interview has made a positive impact on their coping process, that it "felt good" to talk about it and that they were glad to be of help for future patients and families. This reiterates the findings previously stated "remarkable willingness of parents

to donate their children's specimen". We recommend considering this as a possible intervention against parental prolonged grief when evaluating reasonableness of a study design including participation of bereaved families.

As the most prominent inductive data, the majority of statements about not talking with children about their death ("to tell or not to tell") meets the relevance of this topic in scientific discussions that already started to evolve in the 1970ies. [5, 11, 22] Over 40 years later, our data still show incomplete implementation in clinical practice. It is not disputed *if* children should be told that they are dying, because they already know. Instead our data point out that the key factor of parental bereavement is *how* to talk to the children, respectively how to educate the parents in doing so.

Subsequently, we explored the right timing to approach parents with the question of donating their children's specimen for research purposes. Different research groups favor two different timepoints: 1. after completion of radiation, when the symptoms of the child are stabilized, 2. at the time of progression. [14, 2] However, we feel the best time for this seems to be when a "stable palliative interval" was reached before the actual end-of-life phase starts. The institute of neuro-pathology in co-operation with forensic pathology at our center performs clinical post-mortem brain autopsy in pediatric patients, who died from malignant brain tumors. Parents may be screened and approached about participation by our palliative care team. It is thus at the interface between the support work and early phase trials or molecular studies for DIPG.

In order to help prevent and escape the dilemma of mutual pretense, recommendations for communication skills need to be developed and refined as a future perspective. Awareness to the

chances that open communication about death offers relieve for all involved parties. We advise this can be facilitated by very small teams assigned to each family. An experienced senior member of oncological staff should be part of this process.

Conclusion

Our study identifies the relieve of burden that parents of children diagnosed with DIPG experienced, when palliative care was involved throughout their treatment. This support may extend beyond primary care towards recruiting and escorting early phase and molecular studies.

Unmet needs to established concepts for an open and empowering communication about death within affected families are still prevalent. Lack of communication has a negative impact on their bereavement process (table 3:7).

FIGURE 1 Timelines of all courses of the disease. Additionally, the time passed between death of child and interview is highlighted next to each course in a box (median 4 yrs 3 ms). Dx=time of diagnosis, ms=months, yrs=years

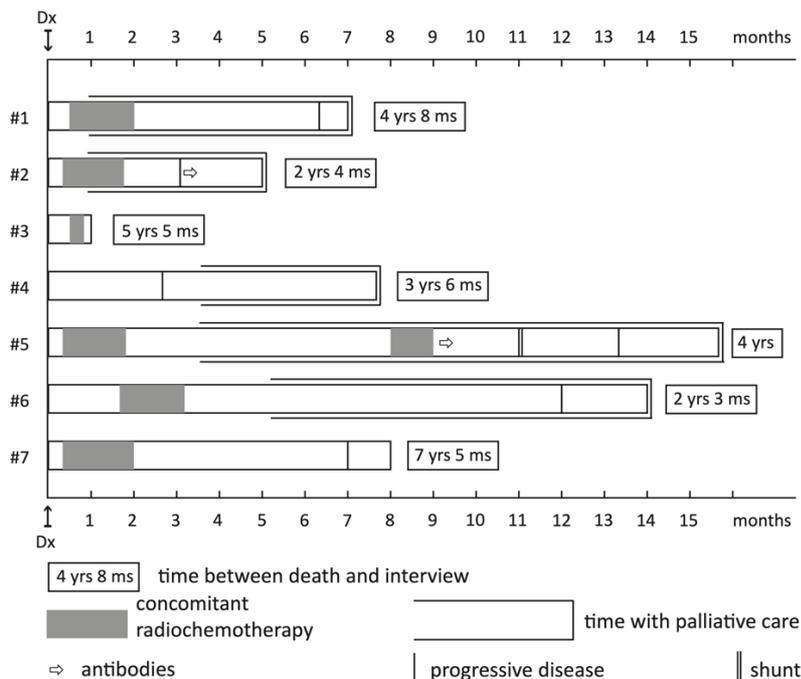


TABLE 1 Results: Demographic data. m=male, f=female, yrs=year, ms=months, RCTX=radiochemotherapy according to HIT-HGG 2007, re-RT=re-irradiation, AB=antibody therapy, BSC=best supportive care

Child	#1	#2	#3	#4	#5	#6	#7
gender	m	m	f	m	m	f	f
age (diagnosis)	5 yrs	11 yrs 8 ms	12 yrs	6 yrs 3 ms	15 yrs 6 ms	8 yrs	7 yrs 5 ms
age (death)	5 yrs 8 ms	12 yrs 1 m	12 yrs 1m	6 yrs 10 ms	16 yrs 10 ms	9 yrs 2 ms	8 yrs
treatment	RCTX	biopsy, RCTX, AB	RCTX	BSC	biopsy, RCTX, re-RT, AB, shunt	biopsy, RCTX	RCTX
time with PC	7 ms	4 ms	-	4 ms	12 ms	9 ms	-
place of death	home	home	hospital	home	home	home	hospital
siblings at home	-	m 17 yrs, f 16 yrs	m older	m 15 yrs, m 12 yrs, m 5 yrs, m 1 yr	f 12 yrs	(m older)	m 3 yrs
new siblings after death	f 3 yrs	-	-	m 1 yr, exp. f	-	-	-
Mother	#1a	#2a	#3a	#4a	#5a	#6a	#7a
age at interview	34 yrs	52 yrs	52 yrs	38 yrs	53 yrs	40 yrs	50 yrs
marital status during disease	in a relationship	separated, in a relationship	married	married	married	in a relationship	married
marital status at interview	married	divorced, in a relationship	idem	idem	idem	single	divorced, in a relationship
occupation	nursing management	secretary	secretary	housewife	job seeking	job seeking	psychotherapist
employment type	25h/week	30h/week	20h/week	-	-	-	25h/week
annual income	16 000 €	no info	19 200 €	-	-	unemployment benefits	27 600 €
Father	#1b	#2b	#3b	#4b	#5b	#6b	
age at interview	36 yrs	55 yrs	51 yrs	39 yrs	53 yrs	39 yrs	
marital status during disease	in a relationship	separated, in a relationship	married	married	married	in a relationship	
marital status at interview	married	divorced, in a relationship	idem	idem	idem	single	
occupation	electronics technician	customs officer	senior manager (engineer)	professional driver	merchant	retraining professional driver	
employment type	full time	full time	full time	full time	full time	full time	
annual income	50 000 €	45 000 €	80 000 €	no info	40 000 €	unemployment benefits	

TABLE 2 Category tree: coping strategies of children and parents during the disease (sorted by number of parents mentioned)

Coping during disease

Child

1. self-determination/defiance (13 quotes by 6 parents)
2. normal everyday life (13 quotes by 5 parents)
3. communication about death (12 quotes by 5 parents)
 - a. child didn't want to talk about it (10 quotes by 4 parents)
 - b. child made an effort but I didn't grant it (2 quotes by 2 parents)
4. longing for closeness within family (6 quotes by 5 parents)
5. maturing/bravery (9 quotes by 4 parents)
6. cheerfulness/light-heartedness (8 quotes by 4 parents)
7. shame (5 quotes by 3 parents)
8. supporting parents/feeling responsible (4 quotes by 3 parents)
9. anger (3 quotes by 3 parents)
10. fatigue (2 quotes by 2 parents)
11. trust in parents (3 quotes by 1 parent)
12. confidence (2 quotes by 1 parent)
13. compassion towards parents (1)

Parents

Strategies

14. neglect/functioning-mode (8 quotes by 6 parents)
15. hope for cure (10 quotes by 5 parents)
16. acceptance (9 quotes by 5 parents)
17. seeking for alternative therapies (7 quotes by 2 parents)
18. strong memory for key events (2 quotes by 2 parents)
19. distraction (1)
20. showing strength (1)

Feelings

21. positive attitude (4 quotes by 4 parents)
22. overburdened (7 quotes by 3 parents)
23. exhausted (3 quotes by 3 parents)

- 24. helpless (4 quotes by 2 parents)
- 25. frightened (2 quotes by 2 parents)
- 26. compassion towards child (2 quotes by 2 parents)

Support by

- 27. religion/esoterics/spirituality (6 quotes by 3 parents)
- 28. friends (3 quotes by 3 parents)
- 29. spouse (3 quotes by 3 parents)
- 30. professional psychologist (6 quotes by 2 parents)
- 31. employer (2 quotes by 2 parents)
- 32. family (2 quotes by 2 parents)
- 33. school (1)

Disruptives

- 34. friends (3 quotes by 2 parents)
- 35. marriage (2 quotes by 2 parents)
- 36. family (1)
- 37. lacking child care for siblings (1)

TABLE 3 Category tree: parental bereavement strategies (sorted by number of parents mentioned)

**Parental bereavement
Strategies**

- 1. Thoughts/behaviour
 - a. we wanted to live on (8 quotes by 4 parents)
 - b. self-determination: everyone grieves differently (3 quotes by 3 parents)
 - c. child wanted to protect me (2 quotes by 2 parents)
 - d. child had supernatural powers (4 quotes by 1 parent)
 - e. varia: indefinite hope; I've got to heal myself, no one can do it for me; I slipped emotionally and physically; he said goodbye to me; got a tattoo as remembrance (1)
- 2. Persons
 - a. support groups (16 pos. by 6 mothers and 1 father; 8 neg. by 3 fathers and 1 mother)
 - b. partner (8 pos. by 7 parents; 1 neg.)
 - c. family (7 pos. by 4 parents; 6 neg. by 6 parents)

- d. friends (5 pos. by 4 parents; 5 neg. by 5 parents)
- 3. Religion/esoterics/spirituality
 - a. she is still with us as a supernatural being (12 quotes by 1 parent)
 - b. supernatural surroundings: “he chose time of death”, “sun came breaking through in the moment of his death” (2 quotes by 1 parent)
 - c. I’ve lost my faith (1)
- 4. Professional psychological support (9 quotes by 5 parents)
- 5. Research/gathering information (9 quotes by 4 parents)
- 6. Work
 - a. work helped me to find back to life (2 quotes by 2 parents)
 - b. I have never regained full efficiency (2 quotes by 2 parents)

Still bemoaning

- 7. missed opportunity to talk about death (8 quotes by 4 parents)
- 8. lack of understanding (3 quotes by 3 parents)
- 9. grief about behavior of friends/family (5 quotes by 2 parents/spouses)
- 10. doubts about effectiveness/necessity of treatment (3 quotes by 1 parent)
- 11. financial contribution on individual medical curative trials (1)
- 12. grief about poor use of last months with child (1)

Conclusion/outlook

- 13. will never be coped, but it is ok (10 quotes by 9 parents)
- 14. I did ok (8 quotes by 6 parents)
- 15. it changed me/prepared me for future struggles (3 quotes by 1 parent)
- 16. I still can’t fully grasp what happened (2 quotes by 1 parent)
- 17. helped me cherish what I still got (2 quotes by 1 parent)
- 18. glad he was too little to understand (2 quotes by 1 parent)
- 19. varia: I still want to be updated in recent research findings on the disease; it was an absolute nightmare, I barely survived; my confidence is spoiled, I am more frightened now; developed my own coping strategies and with these I am fine; thankful for intensive family time, grew us more together; unique identifying isolation experience (1)

References

1. Alridge J, Shimmon K, Miller M, et al. 'I can't tell my child they are dying'. Helping parents have conversations with their child. *Arch Dis Child Educ Pract Ed.* 2017; 102(4): 182-187.
2. Angelini P, Hawkins C, Laperriere N, et al. Post mortem examinations in diffuse intrinsic pontine glioma: challenges and chances. *J Neurooncol.* 2011; 101(1):75-81.
3. Aoun S, Bird S, Kristjanson LJ, et al. Reliability testing of the FAMCARE-2 scale: measuring family carer satisfaction with palliative care. *Palliat Med.* 2010; 24(7): 674-681.
4. Beaumont C and Nikolaichuk C. FAMCARE- and FAMCARE2-Guidelines. Palliative and End-of-Life Institute, Health Service Centre, Grey Nuns Hospital, Edmonton, AB. 2012. Available at: https://www.researchgate.net/profile/Cheryl_Nikolaichuk/publication/267944835_FA_MCARE_and_FAMCARE-2_Guidelines/links/5550ae2e08ae739bdb91f82e.pdf. Accessed October 7, 2021.
5. Bluebond-Langner M. The private worlds of dying children. Princeton, N. J.: Princeton University Press; 1978.
6. Buczkowicz P and Hawkins C. Pathology, molecular genetics, and epigenetics of diffuse intrinsic pontine glioma. *Front Oncol.* 2015; 5: 147.
7. Caretti V. Implementation of a multi-institutional diffuse intrinsic pontine glioma autopsy protocol and characterization of a primary cell culture. *Neuropathol Appl Neurobiol.* 2012; 39: 426-436.
8. Chibanda D, Weiss HA, Verhey R. Effect of a Primary Care-Based Psychological Intervention on Symptoms of Common Mental Disorders in Zimbabwe. A Randomized Clinical Trial. *JAMA* 2016; 316(24): 2618-2626.
9. da Silva FM, Jacob E, Nascimento LC. Impact of childhood cancer on parents' relationships: an integrative review. *J Nurs Scholarsh.* 2010; 42(3): 250-261.
10. Dresing T and Pehl T. Praxisbuch Interview, Transkription & Analyse. Anleitungen und Regelsysteme für qualitativ Forschende. 8. Aufl. Marburg; 2015. Available at: https://www.audiotranskription.de/wp-content/uploads/2020/11/Praxisbuch_08_01_web.pdf. Accessed October 7, 2021.
11. Easson WM. The dying child. The management of the child or adolescent who is dying. 2nd ed. Springfield, Illinois, USA: Charles C. Thomas; 1970.
12. Hoffman LM, Veldhuijzen van Zanten SEM, Colditz N, et al. Clinical, radiologic, pathologic, and molecular characteristics of long-term survivors of diffuse intrinsic pontine glioma (DIPG): a collaborative report from the International and European society for pediatric oncology DIPG registries. *J Clin Oncol.* 2018; 36(19): 1963-1972.
13. Husebø S, Mathis G, Klaschik E. Palliativmedizin. 6. Aufl. Heidelberg: Springer-Verlag GmbH Deutschland, 2017.
14. Kambhampati M. A standardized autopsy procurement allows for the comprehensive study of DIPG biology. *Oncotarget* 2015; 6(14): 12740-12747.
15. Kieran MW. Lessons learned from diffuse intrinsic pontine glioma: how a terrible disease forced us to think better. *Neuro Oncol.* 2017; 19(8): 1017-1018.
16. Kieran MW. Time to rethink the unthinkable: upfront biopsy of children with newly diagnosed diffuse intrinsic pontine glioma (DIPG). *Pediatr Blood Cancer* 2015; 62(1): 3-4.
17. Kreicbergs U, Valdimarsdóttir U, Onelöv E, et al. Talking about death with children who have severe malignant disease. *N Engl J Med.* 2004; 351: 1175-1186.

18. Kuckartz U. Einführung in die computergestützte Analyse qualitativer Daten. 1. Aufl. Wiesbaden: VS Verlag für Sozialwissenschaften/GWV Fachverlage GmbH; 2005.
19. Mayring P. Qualitative Inhaltsanalyse. Grundlagen und Techniken. 12. Aufl. Weinheim und Basel: Beltz Verlag; 2015
20. Monterosso L, and Kristjanson LJ. Supportive and palliative care needs of families of children who die from cancer: an Australian study. *Palliat Med.* 2008; 22(1): 59-69.
21. Müller K, Schlamann A, Guckenberger M, et al. Craniospinal irradiation with concurrent temozolomide for primary metastatic pediatric high-grade or diffuse intrinsic pontine gliomas. A first report from the GPOH-HIT-HGG Study Group. *Strahlenther Onkol.* 2014; 190(4): 377-381.
22. Niethammer D. Das sprachlose Kind. Vom ehrlichen Umgang mit schwer kranken und sterbenden Kindern und Jugendlichen. 1. Aufl. Stuttgart: Schattauer GmbH; 2008.
23. Perilongo G, Rigon L, Sainati L, et al. Topical Topic: Palliative and Terminal Care for Dying Children; Proposal for Better Care. *Medical and Pediatric Oncology* 2001; 37: 59-61.
24. Pohlkamp L, Kreicbergs U, Sveen J. Bereaved mothers' and fathers' prolonged grief and psychological health 1 to 5 years after loss—A nationwide study. *Psycho-Oncology.* 2019; 28:1530–1536.
25. Saiki-Craighill S. The personal development of mothers of terminal cancer patients: How Japanese women change through the experience of caring for and losing their children to cancer. *Qualitative Health Research* 2002; 12(6): 769-779.
26. Schröder H, Lilienthal S, Schreiber-Gollwitzer BM, et al. S3-Leitlinie Psychosocial Care in Pediatric Oncology and Hematology on behalf of: Gesellschaft für Pädiatrische Onkologie und Hämatologie (GPOH) 2019; AWMF-Registernummer: 025-002
27. Sewtz C, Muscheites W, Kriesen U, et al. Questionnaires measuring quality of life and satisfaction of patients and their relatives in a palliative care setting-German translation of FAMCARE-2 and the palliative care subscale of FACIT-Pal. *Ann Palliat Med.* 2018; 7(4): 420-426.
28. Stevens MM, Rytmeister RJ, Proctor MT, et al. Children Living With Life-Threatening or Life-Limiting Illnesses: A Dispatch From the Front Lines. In: Corr CA and Balk DE (Hrsg). *Children's encounters with death, bereavement, and coping.* New York: Springer Pub; 2008: 147-166.
29. Vernick J and Karon M. Who's afraid of death on a leukemia ward? *Am J Dis Child* 1965; 109: 393-397.
30. Zernikow B. Palliativversorgung von Kindern, Jugendlichen und jungen Erwachsenen. 2. Aufl. Berlin Heidelberg: Springer-Verlag; 2013.

2. Darstellung der Publikation

Einleitung

Das diffus intrinsische Ponsgliom (DIPG) des Kindesalters weist eine hohe Sterblichkeit auf und eine mediane Gesamtüberlebenszeit von weniger als einem Jahr. [12, 15] In der WHO-Klassifikation von 2016 gehört es zu der neu definierten Entität des diffusen Mittellinienglioms mit H3 K27M-Mutation. Adjuvante Therapien wie Radiatio, Chemotherapie, Biologika oder zielgerichtete Therapien können das mittlere Gesamtüberleben von fünf auf lediglich neun Monate verlängern. [6, 12, 22]

Bereits zur Diagnosestellung eines DIPG wird in der Regel ein Palliativteam hinzugezogen. [27]

Eine interessante und in der Literatur allgegenwärtige Frage der pädiatrischen Palliativmedizin besteht darin, ob mit den Kindern darüber gesprochen wird, dass sie sterben (in der Literatur ist dieser Themenkomplex unter der Phrase „to tell or not to tell“ bekannt). Diese Frage stellt einen Schlüsselpunkt in der weiteren Verarbeitung und Trauerarbeit der hinterbliebenen Eltern dar. Auch in unserer Studie wird sich dieser Aspekt als relevanter induktiver Themenkomplex deutlich hervortun und in Ergebnisteil und Diskussion eingehend beleuchtet.

Bereits im frühen Grundschulalter von fünf bis sieben Jahren können Kinder abstrakte Konzepte wie Gegenwart und Zukunft begreifen. Folglich sind sie auch zu existenziellem Leiden und antizipatorischer Trauer um ihren eigenen Tod fähig. [5, 11, 32] Chronisch kranke Kinder verfügen über eine geschärfte Wahrnehmung für Unausgesprochenes, ihnen vorenthaltene Information, überspielte Angst, Trauer, Unsicherheit seitens der Eltern, aber auch für ihr eigenes Befinden, das trotz Therapie nicht besser, sondern immer schlechter wird. So verstehen selbst kleine Kinder, dass etwas nicht in den gewohnten Bahnen verläuft. Sie merken, dass sie so krank sind, wie sie es noch nie waren, sie spüren, dass dieser Vorgang durch nichts aufzuhalten ist. Die Kinder verstehen irgendwann auch, dass am Ende dieses Leidens ihr Tod steht. In diesem Stadium der Erkenntnis ist es dem Kind immer weniger möglich, die volle Bedeutung des Todes in seiner Irreversibilität, Nonfunktionalität und Universalität zu leugnen, was Unsicherheit, Angst und Trauer hervorruft. [17, 31] In der Literatur zeigt sich mittlerweile eine sehr klare Haltung gegenüber dieser Thematik: Kinder, die den

persönlichen Wunsch und die Erlaubnis der Eltern haben, ihre Krankheit offen in der Familie zu diskutieren, haben die besten Voraussetzungen, die Unterstützung zu bekommen, die sie benötigen. [29] In der Richtlinie zur Diagnosekommunikation der Société Internationale d'Oncologie Pédiatrique (SIOP) wird gar nicht mehr auf die Frage eingegangen, *ob* die Kommunikation mit den Kindern stattfinden soll, sondern nur auf welche Weise. [19]

Bei der Frage, ob mit einem Kind über seinen Tod gesprochen werden soll, muss neben dem Kindeswohl auch das Wohl der Eltern berücksichtigt werden. Die palliativmedizinische Forschung der letzten Jahrzehnte hat gezeigt, dass es für Eltern durchaus möglich ist, aus der schrecklichen Erfahrung des Verlusts eines Kindes gestärkt herauszugehen und sogar davon zu profitieren. So sind Eltern beispielsweise in der Lage, den Prioritätenshift zu schätzen, den sie nach dem Tod ihres Kindes oft wahrnehmen. [26] Voraussetzungen für eine erfolgreiche elterliche Trauerbewältigung sind: Eine starke und positive Beziehung zum Kind [13], persönliche Unterstützung durch den Lebens-/Ehepartner [9], professionelle (d. h. medizinische und/oder psychologische) Unterstützung [21] sowie bei den Fachkräften das Gefühl von Menschlichkeit, Einfühlungsvermögen und die Anerkennung, etwas Besonderes zu sein. Gelingt es den Eltern, die Unheilbarkeit der Krankheit ihres Kindes zu akzeptieren, können sie lernen, die anfängliche Hoffnung auf Heilung in eine neue, realistischere und nützlichere Perspektive der Hoffnung umzuwandeln. Dabei kann es sich z. B. um die Hoffnung auf eine kurze Lebensendphase, auf weniger Leiden oder auf einen friedlichen Tod handeln. [13, 23, 32] Darüber hinaus wünschen sich viele Eltern, im Versterben des Kindes einen Sinn zu erkennen. Beispielsweise zeigten Eltern in einer kanadischen Studie eine bemerkenswerte Bereitschaft, die Körper ihrer verstorbenen Kinder für Autopsien zu spenden, um zukünftig betroffenen Familien zu helfen. [2, 7, 14]

Es lässt sich festhalten, dass die Kommunikation ein wichtiges Element einer bedarfs- und bedürfnisgerechten pädiatrischen Palliativmedizin darstellt. Eine offene Kommunikation über den Tod erleichtert sowohl den Kindern das Versterben als auch den Eltern das Weiterleben, wird jedoch in der gängigen Praxis nur selten durchgeführt. [1] Durch eine professionelle Betreuung der Familie kann es gelingen, die Realität anzuerkennen, ohne dass dabei die Hoffnung und Lebensfreude verloren gehen. Dabei stellt die Kommunikation über dieses sensible Thema eine große fachliche, ethische und menschliche Herausforderung dar. Trotz vorhandener Leitlinien besteht noch ein

erheblicher Bedarf an Fort- und Weiterbildung. Fachkräfte haben oft das Gefühl, ein "ethisches Niemandsland" zu betreten und improvisieren zu müssen. [24] „Effektive Kommunikation mit den Eltern unter diesen Umständen bleibt schwierig und kann selbst in erfahrenen Händen scheitern.“ [30]

Fragestellung

Der Umgang mit dem DIPG ist für betroffene Eltern eine grauenvolle, nur schwer in Worte zu fassende Erfahrung, die auch methodisch schwer zu fassen ist. Am ehesten eignet sich dafür ein individueller Forschungsansatz, der sich dadurch auszeichnet, die einzelnen Fälle qualitativ abzubilden. Bei dieser Art von Methodik haben neben den üblichen deduktiven Fragestellungen gerade die induktiven Aussagen der Befragten einen hohen Wert. Es wird also im Gegensatz zu quantitativen Forschungsansätzen in der qualitativen Forschung nicht eine zuvor vom Forscher formulierte Hypothese untersucht und zu bewahrheiten versucht, sondern es entsteht ein persönliches Wertesystem des Erlebten, eine eigene Darstellung von Relevanz, Interpretation und Schlussfolgerung.

An dieser Stelle wird folglich anstelle einer klaren Formulierung der Fragestellung die Zielsetzung der Studie dargelegt: Das Forschungsvorhaben dient dazu, kasuistische elterliche Erfahrungsberichte zur Konfrontation mit dem DIPG ihrer Kinder auszuarbeiten.

Diese Entität wurde v. a. aufgrund der begrenzten Lebenszeit ausgewählt. Das Versterben des Kindes ist unausweichlich, ein Palliativdienst wird nahezu immer involviert. Unser Ziel war es, Gemeinsamkeiten und Unterschiede in den Erfahrungen der Eltern mit dieser Krankheit aufzudecken. Darüber hinaus ermitteln wir spezifische Bedürfnisse aus der elterlichen Perspektive und beleuchten typische Probleme in der Interaktion zwischen Familien und Betreuern.

Aus den Erkenntnissen sollen anschließend Handlungsempfehlungen für die palliative Versorgung von Familien mit an DIPG erkrankten Kindern abgeleitet werden, die zur Optimierung des vorhandenen Versorgungsmodells beitragen. Auf diese Weise dienen die Erkenntnisse zur Unterstützung der Mitarbeiter im Umgang und in der Reflektion dieser besonderen Behandlungssituation. Sie sind auch auf andere pädiatrische onkologische Diagnosen übertragbar.

Methodik

Die Ethikkommission der Ärztekammer Hamburg genehmigte unser Vorhaben (PV5246). Es wurde die schriftliche und/oder mündliche Zustimmung aller Eltern eingeholt. Die Studie und die Interviews wurden von mir zum Zweck meiner medizinischen Dissertation entwickelt und durchgeführt. Neben meinem Doktorvater PD Dr. Uwe Kordes wurde ich dabei von Dr. Maite Hartwig betreut, damals angestellte Fachärztin in der Kinderklinik des Universitätsklinikums Hamburg-Eppendorf mit Spezialisierung auf pädiatrische Hämatologie und Onkologie und pädiatrische Palliativmedizin/Schmerztherapie.

Mit dem Ziel, persönliche Wahrnehmungen und intellektuelle Verarbeitung so unvoreingenommen wie möglich zu erfassen, wählten wir ein problemorientiertes Leitfadeninterview aus. Zu diesem Zweck wurde der FAMCARE-2-Fragebogen verwendet. [3, 4, 28] Teil A des Fragebogens erfasst demografische Daten zum soziokulturellen Hintergrund der Familien, Teil B untersucht die Wahrnehmung der Eltern in Bezug auf den Umgang mit körperlichen Symptomen und deren Linderung, die Bereitstellung von Informationen, die Unterstützung der Familie und die psychologische Betreuung der Patienten (siehe Anhang). Die Fragen dienten als strukturgebendes Gedankengerüst für die Durchführung der einzelnen retrospektiven Interviews und wurden wiederholt für die drei wichtigen Zeitpunkte während des Krankheitsverlaufs gestellt: für die Diagnose, für den Zeitpunkt des klinischen/neuroradiologischen Progresses und für den Zeitpunkt des Todes. Auf diese Weise gelang es uns, die Fälle trotz der unterschiedlichen Lebensgeschichten und Charaktere in den einzelnen Familien miteinander vergleichbar zu machen.

Einschlusskriterien waren Eltern mit einem Kind, das zwischen 1999 und 2015 am Universitätsklinikum Hamburg-Eppendorf wegen eines DIPG behandelt wurde und im weiteren Stadtgebiet wohnten. Im Juli und August 2016 wurden 13 Elterninterviews mit sieben Müttern (#1a-#7a), fünf Vätern (#1b-#5b) und einem Stiefvater (#6b) von sieben Kindern geführt, die zwischen 2009 und 2014 an einem DIPG verstorben sind. Die Eltern wurden getrennt befragt.

Ein erstes Interview (#2b) wurde von Frau Dr. Hartwig und mir gemeinsam geführt. Die Arzt-Familien-Beziehung, die sich zwischen der Befragten und Frau Dr. Hartwig während der Behandlung gebildet hatte, beeinträchtigte jedoch das Interview. Die restlichen 12 Interviews führte ich allein. Mit

dem Einverständnis der Teilnehmer wurden alle Interviews auf einem tragbaren mp3-Gerät aufgezeichnet und transkribiert [10], wobei alle Tonaufzeichnungen nach der Transkription gelöscht wurden.

Anschließend führte ich eine qualitative Inhaltsanalyse nach Mayring mit folgenden standardisierten Arbeitsschritten durch [20, 18]:

1. Bestimmung der Analyseeinheiten
2. Festlegung der Strukturierungsdimension (inhaltsorientiert)
3. Bestimmung der Ausprägungen; Zusammenstellung des Kategoriensystems
4. Formulierung von Definitionen, Ankerbeispielen und Kodierregeln zu den einzelnen Kategorien
5. Materialdurchlauf: Fundstellenbezeichnung
6. Materialdurchlauf: Bearbeitung und Extraktion der Fundstellen
7. Überarbeitung, ggf. Revision von Kategoriensystemen und Kategoriendefinitionen
8. Ergebnisaufbereitung

Für die Kodierung der Transkripte verwendete ich MAXQDA-Standard (VERBI Software, Version MAXQDA 2020). Die Qualitätskriterien wurden durch semantische und kommunikative Validität erfüllt. [20]

Ergebnisse

Zur Veranschaulichung der wichtigsten Themen werden im Folgenden *kursiv gedruckte* Zitate angeführt.

Die durchschnittliche vergangene Zeit zwischen Tod und Interview betrug vier Jahre und drei Monate. Die Dauer der Interviews reichte von 22:07 Minuten (#4b) bis 01:26:31 Stunden (#5a), mit einem Mittelwert von 46:24 Minuten. Die Länge der Transkripte reichte von acht (#4b) bis 41 DIN-A4-Seiten (#5a), mit einem Mittelwert von 17 DIN-A4-Seiten.

Die Likert-Skala des Fragebogens erwies sich als hinderlich: Die Eltern zögerten, ihre Erzählungen auf ein bestimmtes Item der Skala herunterzubrechen und zu reduzieren, da dies die freie Rede und Assoziation nicht zu würdigen schien. Daher wurde im Verlauf auf den Gebrauch der Likert-Skala verzichtet.

Die demografischen Daten und Details zur Tumorbehandlung sind Tabelle 1 zu entnehmen. Die mittlere Gesamtüberlebenszeit betrug acht Monate und vier Tage mit einer Spanne von mindestens 22 Tagen (#3) bis maximal 15 Monaten und 20 Tagen (#5). In fünf Familien war der Palliativdienst involviert. Zwei Ausreißer ohne Palliativversorgung traten auf: Ein Kind (#3) starb innerhalb von 22 Tagen nach der Diagnose. In diesem Fall blieb nicht genügend Zeit, um die Krankheitsdynamik richtig einzuschätzen und einen Palliativdienst zu etablieren. Ein anderes Kind (#7) wurde in einer Zeit diagnostiziert und behandelt, zu der es am Universitätsklinikum Hamburg-Eppendorf noch keine spezialisierte Palliativversorgung gab. (s. Abb. 1)

Im Folgenden wird zwischen deduktiven und induktiven Kategorien unterschieden: Alle Antworten, die auf die vorformulierten Themen des Fragebogens gegeben wurden, sind unter deduktiven Kategorien zusammengefasst. Jegliche weitere Information, die sich aus der übrigen freien Erzählung ergab, wurde in induktive Kategorien eingeordnet. Auf diese Weise konnten wir Informationen zum Nachweis unserer Hypothese (deduktiv) von Informationen trennen, die im Laufe der Forschung zu neuen wertvollen Hypothesen führten (induktiv).

Deduktive Kategorien

Alle Eltern gaben an, dass sie mit der Betreuung zufrieden waren, insbesondere mit der Behandlung der körperlichen Symptome und der Unterstützung, der Bereitstellung von Informationen, der Unterstützung der Familie und der psychologischen Betreuung des Patienten. In #3 trat der Tod aufgrund eines schnellen Fortschreitens innerhalb des ersten Monats nach der Diagnose ein. Die abschließende Versorgung erfolgte im Krankenhaus, ohne Eingreifen des spezialisierten Palliativteams. Dennoch zeigte sich auch diese Familie insgesamt zufrieden und dankbar für die meisten Aspekte der Versorgung.

Absolut, absolut, also das kann ich so in Summe sagen, dass ich mich mit meinem Kind wirklich gut aufgehoben gefühlt habe und ich also auch sagen muss, ich das Gefühl hatte, es wurde alles Mögliche getan, [...] wurde [meiner Tochter] angeboten. Sie hat dann auch noch so ein spezielles Bett bekommen, zum Schluss, wo ich den Eindruck hatte, das war gar nicht so einfach, das zu bekommen. Ich hatte das Gefühl, dass die Ärzte und auch die Schwestern, die täglich um uns herum waren, wirklich sehr, sehr bemüht waren und auch das Gespräch gesucht haben, was können wir noch machen, Vorschläge gemacht haben. Also von sich aus auch immer den Impuls gegeben haben, also das waren Dinge, woher soll ich wissen, was man noch machen kann, da kamen immer Vorschläge. Das fand ich unglaublich schön. Wenn ich das jetzt so sagen kann, das war einfach, ja was die leisten [...] war ganz einmalig [...] das Gefühl hatte ich wirklich, das war ganz, ganz, ganz gut. (#3a)

In (#7) war eine spezialisierte Palliativversorgung noch nicht etabliert. Ihre Mutter erlebte einen Mangel an Unterstützung:

Ja, gut, aber ich frag mich manchmal, sie hat kein Schmerzmittel bekommen [...] warum ich keine Schmerzmittel zu Hause hatte, manchmal hadere ich da, manchmal denke ich, warum habe ich eigentlich, als sie diese Schmerzattacken hatte, warum hatte ich nichts an der Hand, was ich ihr geben konnte? Musste warten, bis das abgeklungen ist und das war nachher, als sie im Sterben lag viel großzügiger, da wurde sie sofort mit Morphium vollgepumpt, aber vorher?

(Interviewerin:) Da hätten Sie sich schon gewünscht, dass jemand...

Über die Schmerzen auch mit mir spricht, ja, ja manchmal denke ich, das hätte ich ihr ersparen sollen, diese Schmerzen, ich meine, diese Attacken haben nicht so lange gedauert, aber dieses Schreien, wenn sie... das höre ich heute noch. (#7a)

Aufgrund der mangelnden Symptomkontrolle ihrer Tochter fühlte sich diese Mutter akut hilflos. Sie gibt an, dass diese Erfahrung ihren Kummer anhaltend verlängert. Ebenfalls negativ erwähnte diese Mutter die fehlende Betreuung ihres anderen Kindes. Mittlerweile ist die Berücksichtigung dieser beiden Bedürfnisse Teil des palliativen Behandlungsstandards.

Insgesamt stellte sich als wichtigste negative Kategorie die "interdisziplinäre Kommunikation" heraus. Hier wurde der Wunsch nach einer Kontinuität in der Unterstützung ("Ankerperson") deutlich:

Sie [die betreuende Palliativärztin] war immer ansprechbar. Wenn sie aber Urlaub gemacht hat, was ihr ja gegönnt ist, oder auch ihre anderen Arbeitstätigkeiten noch gemacht hat, dann war schwierig. Und dann hat man sofort andere Ärzte gehabt und [mein Sohn] zum Beispiel konnte das nachher auf den Tod nicht mehr ab, wenn da ein neuer Arzt war und der hat da seine Krankenakte liegen gehabt und hat gesagt: „Erzähl mir mal, was los ist.“ [...] Obwohl [mein Sohn] eigentlich echt ein lieber, netter Typ war, aber hat er gesagt: „Nee, interessiert mich nicht, erzähl’ ich dir nicht mehr.“ Da hat er abgeschaltet. Ja also das war nervig. [...] also eine richtige konstante Vertretung vielleicht hätte man sich gewünscht. [...] Da fühlte man sich ja kurzer Hand so von einer Insel auf die nächste gesetzt und so „fang mal von vorne an“. Das war doof. Das war eigentlich das Schlimmste so mit. So von der Betreuung. (#5b)

Induktive Kategorien zur Krankheitsbewältigung

Die Angaben der Eltern zu den Bewältigungsstrategien, den körperlichen Bedingungen, der Suche nach Unterstützung und Aussagen zu störenden Elementen während des gesamten Krankheitsverlaufs sind induktive Kategorien, da wir nicht explizit danach gefragt haben. Die meisten Zitate zu den Bewältigungsstrategien des Kindes bestanden darin, dass das Kind auffallend selbstbestimmt und versucht war, seinen normalen Alltag aufrechtzuerhalten (Tabelle 2:1+2). Fünf Eltern sprachen insgesamt zwölf Mal die Kommunikation ihres Kindes über den Tod an (Tabelle 2:3): Die meisten Eltern hatten den Eindruck, dass ihr Kind selbst nicht darüber sprechen wollte, auch wenn die Eltern dieses Thema ansprachen (Tabelle 2:3a). Zwei Eltern erinnerten sich an Situationen, in denen sie im Nachhinein sicher waren, dass ihr Kind über das Sterben sprechen wollte, aber zu diesem Zeitpunkt verstanden die Eltern es nicht oder verwehrtem dem Kind die Kommunikation (Tabelle 2:3b). Darüber hinaus stellten die Eltern einen bemerkenswerten Reifeprozess und Mut bei ihrem Kind fest (Tabelle 2:5), gepaart mit einer ausgeprägten Fröhlichkeit/Unbeschwertheit (Tabelle 2:6).

Die wichtigsten Bewältigungsaspekte der Eltern selbst waren ein „Funktionieren“-Modus und die Hoffnung auf Heilung sowie die Akzeptanz des Geschehens (Tabelle 2:14-16). Die Eltern versuchten, sich eine positive Einstellung zu bewahren, fühlten sich aber gleichzeitig überfordert (Tabelle 2:21-22). Unterstützung fanden sie auch bei Religion/Esoterik/Spiritualität, Freunden und Ehepartnern

(Tabelle 2:27-29). Zwei Eltern konsultierten während der Krankheit einen professionellen Psychologen (Tabelle 2:30). Störende Elemente wurden in (ehemaligen) Freundschaften und in einer Ehe, die später scheiterte, erlebt (Tabelle 2:34-35).

Induktive Kategorien zur elterlichen Trauer

Alle Aussagen zur Trauer der Eltern sind induktive Kategorien, da die Zeit nach dem Versterben des Kindes im FAMCARE-2-Fragebogen gar nicht beleuchtet wird. Die Trauerstrategien der Eltern nach dem Tod ihres Kindes sind jedoch zur Evaluation der Palliativversorgung ebenfalls von hohem Wert. Sie wurden aufgeteilt in Bewältigungsstrategien (Tabelle 3:1-6), Probleme, an denen die Eltern immer noch hadern (Tabelle 3:7-12) und Zusammenfassungen wie Ausblicke, Schlussfolgerungen und Aussagen aus der Sicht der eigentlichen Trauer (Tabelle 3:13-19).

Bei der Auswertung der Aussagen der Eltern über die Faktoren, an denen sie immer noch hadern, zeigt sich, dass alle Eltern bedauern, dass sie nicht mit ihren Kindern über den Tod gesprochen haben. Die induktive Kategorie "Kommunikation über den Tod" enthält die meisten und die eindrucklichsten Zitate (Tabelle 3:7). Die Eltern geben an, dass diese verpasste Gelegenheit die größten Auswirkungen auf ihre Trauer hat und ihr Leiden erheblich verlängert. Die folgenden zwei Zitate illustrieren und unterstreichen die Bedeutung dieser Kategorie.

Für mich ist es im Nachhinein so, dass ich mir wünschte, ich hätte offener mit ihr gesprochen, dass sie stirbt oder dass ich... es ging ihr aber so relativ gut und ich wollte auch nicht dieses Thema anschneiden, wenn sie so scheinbar fröhlich ist. Aber sie hat Bilder gemalt, die mich wissen lassen, dass sie es wusste, das interpretier ich so. Sie hat z. B. so ein Engelbild gemalt, wo die vier Blumen in der Luft schweben oder drei bleiben unten und eine schwebt im Himmel, also, solche Bilder hat sie gemalt. [Das Mädchen hatte einen Bruder.] Und ich habe das damals vielleicht nicht sehen wollen oder ich hab das aber im Nachhinein sehr deutlich gesehen, dass sie irgendwie auf eine Art schon geistig irgendwo anders war oder schon Kontakt hatte zu dem, was kommt.

(Interviewerin:) Hat das denn irgendjemand mit ihr besprochen? Wenn Sie selbst nicht konkret mit ihr darüber gesprochen haben, wissen Sie, ob [...] Ihr Mann oder irgendjemand darüber gesprochen hat?

Also [...] ich weiß es nur von meinem Mann, dass, als sie im Sterben lag, dass er sie gefragt hat, ob der Engel schon da war? [weint] Ich hab das nicht geschafft. Ich hab darüber aber nachgedacht im Nachhinein, ob das richtig gewesen wäre, weil sie es vielleicht auch gespürt hat. Dass ich die Kraft gehabt hätte, da weiter mit ihr zu sprechen, ja, aber ich hab das irgendwie, weil es ihr relativ gut ging eben, hab ich es nicht gemacht. Ja, so war es. (#7a)

Und als es ihm so extrem schlecht ging, dass ich ihm nicht helfen konnte. Und einmal hat er was zu mir gesagt und ich hatte das nicht sofort so richtig drauf reagiert, verstanden. Und das bedrückt mich heute eigentlich noch am meisten. Dass ich da nicht das gemacht hab. Er hat ganz selten so einen Ansatz gemacht, dass er gesagt hat was er möchte oder nicht oder was, oder was ihn bedrückt. Und das eine Mal könnte sein, dass er was gemeint hat. Und ich bin mir nicht sicher, dass ich da nicht richtig reagiert hab. Und das ist schade. Aber ich kann es nicht ändern. Also ich glaube es war nicht, dass ich irgendetwas machen sollte, aber ich glaube, er wollte mir was sagen und ich weiß nicht, was. Über seinen Zustand, oder wie es weitergeht oder so. War ziemlich zum Ende, aber trotzdem. (#5b)

In dieser Studie wurde von sieben Kindern vermutlich nur mit einem Kind offen gesprochen. Zwei Familien verharrten in der sogenannten „mutual pretense“, einem Verhalten der gegenseitigen Täuschung: Sowohl das Kind als auch die Eltern wissen um den nahenden Tod des Kindes, verhalten sich aber so, als würde das Kind weiterleben. Zwei Kinder wurden von ihren Eltern aktiv daran gehindert, eine offene Kommunikation zu führen. In zwei weiteren Fällen bleibt das Konzept unklar.

Diskussion

Grundlegend festhalten lässt sich die Machbarkeit und Durchführbarkeit einer solchen Interviewstudie im vorliegenden Design. Das gewählte problemorientierte Leitfadenterview war in der Lage, persönliche Wahrnehmungen auf unvoreingenommene Weise zu erfassen. Retrospektive Erzählungen erwiesen sich für unsere Zwecke als sehr wertvoll. Unserer Erfahrung nach ist es hilfreich, wenn eine neutrale dritte Partei solche Interviews durchführt, während die Anwesenheit einer damals involvierten Person problematisch sein kann. In dieser mono-institutionellen Studie ist es uns gelungen, alle Interviews mit einem einheitlichen Ansatz und unter reproduzierbaren Bedingungen durchzuführen. Unsere Daten zeigen, dass dies für eine Interviewerin wie mich mit medizinischem

Hintergrund und zusätzlicher Unterstützung auch ohne psychologische oder psychotherapeutische Ausbildung möglich war. Unser Ansatz deckt sich auf diese Weise mit anderen neueren Studien zur Untersuchung von Unterstützung durch Laien, z. B. der "Friendship Bench"-Intervention in Simbabwe. Hier erwies sich die von medizinischen Laienmitarbeitern durchgeführte individuelle Problemlösungstherapie als wirksame primärversorgungsbasierte Behandlung häufiger psychischer Störungen. [8]

Unsere deduktiven Daten zeigen, dass die Eltern insgesamt weniger belastet sind, wenn das Palliativteam in die Behandlung der DIPG-Erkrankung ihrer Kinder einbezogen wird. Mangelnde Unterstützung in Familien ohne Palliativversorgung wird in den Standards der palliativen Behandlungspläne gedeckt. Die wichtige Rolle der Palliativversorgung an der Schnittstelle zwischen Familie und klinischer Standardversorgung erstreckt sich auch auf klinische Forschungsprojekte.

Pohlkamp et al. [25] entdeckten kürzlich die Prävalenz von elterlicher anhaltender Trauer, Depression, posttraumatischem Stress und Schlaflosigkeit noch bis zu fünf Jahre nach dem Verlust eines Kindes. Wir stellten ähnliche Stressfaktoren in unserer mittleren Zeitspanne zwischen Tod und Befragung von vier Jahren und drei Monaten fest (Minimum zwei Jahre und drei Monate, Maximum sieben Jahre und fünf Monate). Aufgrund unseres Forschungsansatzes mit den offenen Interviews entdeckten wir jedoch auch recht positive Ausblicke: Die meisten Eltern kamen zu dem Schluss, dass sie die Erfahrung, ein Kind verloren zu haben, nie verarbeiten werden, aber sie fühlten sich damit im Reinen (Tabelle 3:13) und sechs Eltern hatten das Gefühl, dass es ihnen im Nachhinein im Grunde gut ging (Tabelle 3:14).

Eltern von sterbenden Kindern sowie trauernde Eltern haben auch das Bedürfnis, dem Tod ihres Kindes einen Sinn zu geben. [14, 16] Diese Studie ist ein Beispiel dafür, dass es von Vorteil sein kann, sie zu Forschungszwecken anzusprechen, auch wenn schon viel Zeit vergangen ist: *Alle* an dieser Studie teilnehmenden Eltern gaben an, dass sich das Interview positiv auf ihren Bewältigungsprozess ausgewirkt hat, dass es sich "gut anfühlte", darüber zu sprechen, und dass sie froh waren, künftigen Patienten und Familien eine Hilfe sein zu können. Dies bestätigt die bereits erwähnte "bemerkenswerte Bereitschaft" der Eltern, die Körper ihrer Kinder für Autopsien zu spenden. Wir empfehlen, dies als mögliche Intervention gegen die anhaltende Trauer der Eltern in Betracht zu

ziehen, wenn es darum geht, die Angemessenheit eines Studiendesigns zu bewerten, das die Teilnahme von trauernden Familien vorsieht.

Als auffälligste induktive Kategorie trifft die Vielzahl der Aussagen über die verpasste Chance, mit dem Kind über den Tod zu sprechen ("to tell or not to tell") die Relevanz dieses Themas im wissenschaftlichen Diskurs. [5, 11, 23] Die schwedische Arbeitsgruppe um Kreicbergs untersuchte 2004 diesen Aspekt in einer großen Kohorte verwaister Eltern (n=449). Hier hatten nur 34% der Eltern mit ihrem Kind über den Tod gesprochen. Ferner berichtete niemand dieser 147 Eltern, diese offene Kommunikation mit dem Kind über den Tod bereut zu haben. Von den übrigen Eltern, bei denen eine Kommunikation nicht stattgefunden hatte, machten sich viele im Nachhinein große Vorwürfe, dem Kind den Raum zum Gespräch über den Tod nicht gegeben zu haben, insbesondere dann, wenn sie davon ausgingen, dass dem Kind dessen nahender Tod bewusst war. [17, 32] Unsere Ergebnisse reihen sich hier ein. Es ist nicht strittig, *ob* Kindern gesagt werden sollte, dass sie sterben werden, denn das wissen sie bereits. Vielmehr weisen auch unsere Daten darauf hin, dass der Schlüssel bei der elterlichen Trauerarbeit darin besteht, *wie* man mit den Kindern spricht bzw. wie man die Eltern dabei anleitet. [19]

Ausblick und Schlussfolgerung

Zur praktischen Anwendung unserer Daten untersuchten wir den richtigen Zeitpunkt, um Eltern mit der Frage zu konfrontieren, ob sie postmortem Proben ihrer Kinder für Forschungszwecke spenden wollen. In der Literatur werden dafür zwei unterschiedliche Zeitpunkte favorisiert: 1. nach Abschluss der Bestrahlung, wenn sich die Symptome des Kindes stabilisiert haben, 2. zum Zeitpunkt des Progresses. [14, 2] Unserer Meinung nach scheint jedoch der beste Zeitpunkt zu sein, wenn ein "stabiles palliatives Intervall" erreicht wurde, bevor die eigentliche Phase des Lebensendes beginnt. Das Institut für Neuropathologie des Universitätsklinikum Hamburg-Eppendorf führt in Zusammenarbeit mit der forensischen Pathologie klinische Hirnautopsien bei pädiatrischen Patienten durch, die an bösartigen Hirntumoren gestorben sind. Die Eltern können von unserem Palliativteam untersucht und auf eine Teilnahme angesprochen werden. Es befindet sich damit an der Schnittstelle zwischen der Betreuungsarbeit und Frühphasenversuchen oder molekularen Studien für DIPG.

Um dem Dilemma der gegenseitigen Täuschung („mutual pretense“) vorzubeugen und zu entkommen, müssen als Zukunftsperspektive Empfehlungen zur Kommunikationsfähigkeit entwickelt und verfeinert werden. Das Bewusstsein für die Chancen, die eine offene Kommunikation über den Tod für alle Beteiligten bietet, sollte gestärkt werden. Wir empfehlen, dass dies durch sehr kleine Teams, die den einzelnen Familien fest zugeordnet sind, erleichtert werden kann. Ein erfahrener leitender Mitarbeiter der Onkologie sollte an diesem Prozess beteiligt sein.

Unsere Studie zeigt die Entlastung, die Eltern von Kindern mit der Diagnose DIPG erfahren, wenn das Palliativteam während der gesamten Behandlung einbezogen wird. Diese Unterstützung könnte sich über die Primärversorgung hinaus auf die Rekrutierung und Begleitung von early phase- und Molekularstudien erstrecken.

Der Bedarf an Konzepten für eine offene und befähigende Kommunikation über den Tod in den betroffenen Familien ist nach wie vor groß. Der Mangel an Kommunikation hat negative Auswirkungen auf den Trauerprozess.

3. Zusammenfassung

Hintergrund

Das Diffus Intrinsische Pongliom (DIPG) zählt zu den Diffusen Mittelliniengliomen (DMG) und ist das häufigste maligne Gliom des Kindesalters mit einer mittleren Überlebensrate von nur elf Monaten. Diese retrospektive Interviewstudie ermittelt spezifische psychische Bewältigungsstrategien und Bedürfnisse der betroffenen Eltern.

Methode

Im Jahr 2016 wurden 13 Interviews mit Eltern von sieben im Alter von fünf bis 16 Jahren an DIPG verstorbenen Kindern geführt. Es wurde ein problemzentriertes Leitfadenterview und anschließend eine inhaltlich und evaluierend strukturierende qualitative Inhaltsanalyse nach Mayring 2015 durchgeführt.

Ergebnisse

Die wichtigste induktive Kategorie war die Kommunikation zwischen Eltern und Kind über dessen bevorstehendes Versterben. Darüber hinaus bestätigten die Eltern insgesamt Zufriedenheit bezüglich des Palliativdienstes. Fehlende psychosoziale Unterstützung wurde durch ein Hinzuziehen des Palliativdienstes erfolgreich kompensiert.

Schlussfolgerung

Retrospektive Elterninterviews in diesem Kontext sind durchführbar. Der frühzeitige Einsatz des Palliativteams entlastet die Eltern. Die Konzepte für eine offene Kommunikation in den betroffenen Familien und zwischen Behandlungszentrum und Familien benötigen eine fortwährende Anpassung und Weiterentwicklung. Der Palliativdienst nimmt auch eine Schlüsselposition in der Kommunikation mit Frühphasenstudien und molekularen Begleitstudien ein.

Englische Fassung:

Background

Diffuse intrinsic pontine glioma (DIPG), now Diffuse midline glioma (DMG), is the most common malignant glioma in early childhood with median survival of only eleven months. This retrospective interview study investigates specific coping strategies and needs of affected parents.

Method

13 interviews with parents of seven children who died from DIPG at the age of five to 16 years were conducted in 2016. The used method is a problem-oriented guided interview with consecutive content and evaluating structuring analysis according to Mayring 2015.

Results

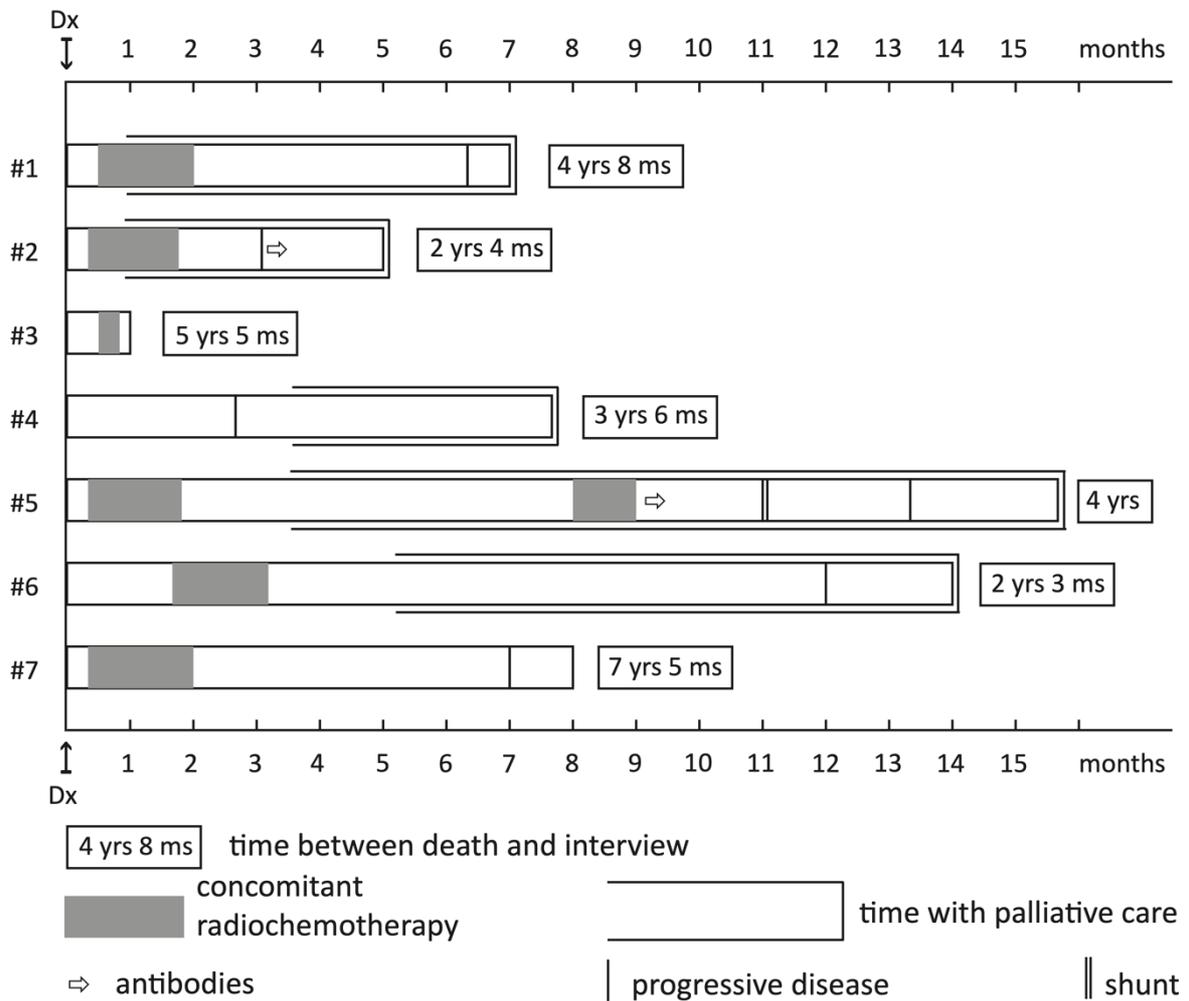
Major inductive category was whether the parents had talked to their children about their upcoming death. All parents stated overall satisfaction and comfort regarding their palliative care. Lack of psycho-social support in families was successfully addressed by involving palliative care.

Conclusions

Retrospective interview studies in this context are feasible. Early involvement of the palliative care team may relieve burden from affected parents. Open communication about death proved helpful for all involved parties, it may facilitate acceptance of terminal illness and alleviate guilt in parents. Concepts for an open and empowering communication within families and between treatment site and families need continuing adjustment. The Palliative care team may also have a key role regarding early phase trials and molecular studies.

4. Anhang

ABBILDUNG 1 Krankheitsverläufe der Kinder¹



¹ Dx=Zeitpunkt der Diagnosestellung, yrs=Jahre, ms=months

TABELLE 1 Demographische Daten²

Kind	#1	#2	#3	#4	#5	#6	#7
Geschlecht	m	m	w	m	m	w	w
Alter (Diagnose)	5 J.	11 J. 8 M.	12 J.	6 J. 3 M.	15 J. 6 M.	8 J.	7 J. 5 M.
Alter (Versterben)	5 J. 8 M.	12 J. 1 M.	12 J. 1 M.	6 J. 10 M.	16 J. 10 M.	9 J. 2 M.	8 J.
Behandlung	RCTX	Biopsie, RCTX, AB	RCTX	BSC	Biopsie, RCTX, re-RT, AB, Shunt	Biopsie, RCTX	RCTX
Zeit mit SAPV	7 M.	4 M.	-	4 M.	1 J.	9 M.	-
Ort des Todes	zu Hause	zu Hause	KH	zu Hause	zu Hause	zu Hause	KH
Geschwisterkinder	-	m 17 J., w 16 J.	m (älter)	m 15 J., m 12 J., m 5 J., m 1 J.	w 12 J.	(m älter)	m 3 J.
posthum geborene Geschwister	w 3 J.	-	-	m 1 J., erwarten w	-	-	-
Mutter	#1a	#2a	#3a	#4a	#5a	#6a	#7a
Alter (Interview)	34 J.	52 J.	52 J.	38 J.	53 J.	40 J.	50 J.
Beziehungsstatus (Krankheit)	in einer Beziehung	getrennt, in einer Beziehung	verheiratet	verheiratet	verheiratet	in einer Beziehung	verheiratet
Beziehungsstatus (Interview)	verheiratet	geschieden, in einer Beziehung	idem	idem	idem	alleinstehend	geschieden, in einer Beziehung
Beruf	Krankenpflege (Leitung)	Sekretärin	Sekretärin	Hausfrau	arbeitsuchend	arbeitsuchend	Psychotherapeutin
Beschäftigungsverhältnis	25 Std./Woche	30 Std./Woche	20 Std./Woche	-	-	-	25 Std./Woche
Jahreseinkommen	16 000 €	nicht angegeben	19 200 €	-	-	Arbeitslosengeld	27 600 €
Vater	#1b	#2b	#3b	#4b	#5b	#6b	#7b
Alter (Interview)	36 J.	55 J.	51 J.	39 J.	53 J.	39 J.	
Beziehungsstatus (Krankheit)	in einer Beziehung	getrennt, in einer Beziehung	verheiratet	verheiratet	verheiratet	in einer Beziehung	
Beziehungsstatus (Interview)	verheiratet	geschieden, in einer Beziehung	idem	idem	idem	alleinstehend	
Beruf	Elektrotechniker	Zollbeamter	Senior Manager (Ingenieur)	Busfahrer	Kaufmann	Umschulung zum Busfahrer	
Beschäftigungsverhältnis	Vollzeit	Vollzeit	Vollzeit	Vollzeit	Vollzeit	Vollzeit	
Jahreseinkommen	50 000 €	45 000 €	80 000 €	nicht angegeben	40 000 €	Arbeitslosengeld	

² m=männlich, w=weiblich, J.=Jahre, M.=Monate, RCTX=Radiochemotherapie nach HIT-HGG 2007, re-RT=re-Radiatio, AB=Antikörpertherapie, BSC=best supportive care, KH=Krankenhaus

TABELLE 2 Kategorienbaum: Bewältigungsstrategien während des Krankheitsverlaufs

(sortiert nach Anzahl der Zitate)

Kind

1. Selbstbestimmung/Trotz (13 Zitate von 6 Eltern)
2. normales Alltagsleben (13 Zitate von 5 Eltern)
3. Kommunikation über den Tod (12 Zitate von 5 Eltern)
 - a. das Kind wollte nicht darüber sprechen (10 Zitate von 4 Eltern)
 - b. das Kind hat sich bemüht, aber ich habe es nicht zugelassen (2 Zitate von 2 Eltern)
4. Sehnsucht nach Nähe innerhalb der Familie (6 Zitate von 5 Eltern)
5. Reife/Mut (9 Zitate von 4 Eltern)
6. Fröhlichkeit/Unbeschwertheit (8 Zitate von 4 Eltern)
7. Schamgefühl (5 Zitate von 3 Eltern)
8. Unterstützung der Eltern/Verantwortungsgefühl (4 Zitate von 3 Eltern)
9. Wut (3 Zitate von 3 Eltern)
10. Müdigkeit (2 Zitate von 2 Eltern)
11. Vertrauen in die Eltern (3 Zitate von 1 Elternteil)
12. Vertrauen in sich selbst (2 Zitate von 1 Elternteil)
13. Mitgefühl mit den Eltern (1)

Eltern

Strategien

1. Neglekt/“Funktionieren“-Modus (8 Zitate von 6 Eltern)
2. Hoffnung auf Heilung (10 Zitate von 5 Eltern)
3. Akzeptanz (9 Zitate von 5 Eltern)
4. Suche nach alternativen Therapien (7 Zitate von 2 Eltern)
5. besondere Ereignisse bleiben in besonderer Erinnerung (2 Zitate von 2 Eltern)
6. Ablenkung (1)
7. Stärke zeigen (1)

Gefühle

8. positive Einstellung (4 Zitate von 4 Eltern)
9. Überlastung (7 Zitate von 3 Eltern)
10. Erschöpfung (3 Zitate von 3 Eltern)
11. Hilflosigkeit (4 Zitate von 2 Eltern)
12. Angst (2 Zitate von 2 Eltern)
13. Mitleid mit dem Kind (2 Zitate von 2 Eltern)

Unterstützung durch

14. Religion/Esoterik/Spiritualität (6 Zitate von 3 Eltern)
15. Freunde (3 Zitate von 3 Eltern)
16. Ehepartner (3 Zitate von 3 Elternteilen)
17. Psychologe (6 Zitate von 2 Elternteilen)
18. Arbeitgeber (2 Zitate von 2 Elternteilen)
19. Familie (2 Zitate von 2 Elternteilen)
20. Schule (1)

Störfaktoren

21. Freunde (3 Zitate von 2 Elternteilen)
22. Ehe (2 Zitate von 2 Elternteilen)
23. Familie (1)
24. fehlende Kinderbetreuung für Geschwister (1)

TABELLE 3 Kategorienbaum: Elterliche Trauer (sortiert nach Anzahl der Zitate)

Bewältigungsstrategien

1. Gedanken/Verhaltensweisen
 - a. wir wollten weiterleben (8 Zitate von 4 Eltern)
 - b. Selbstbestimmung: Jeder trauert anders (3 Zitate von 3 Eltern)
 - c. ich hatte das Gefühl, mein Kind wollte mich beschützen (2 Zitate von 2 Eltern)
 - d. das Kind hatte übernatürliche Kräfte (4 Zitate von 1 Elternteil)
 - e. varia: unbestimmte Hoffnung; ich muss mich selbst heilen, niemand kann das für mich tun; ich bin emotional und körperlich abgerutscht; er hat sich von mir verabschiedet; habe ein Tattoo als Erinnerung (je 1)
2. Personen
 - a. Selbsthilfegruppen (16 pos. Nennungen von 6 Müttern und 1 Vater; 8 neg. Nennungen von 3 Vätern und 1 Mutter)
 - b. Partner (8 pos. Nennungen von 7 Eltern; 1 neg. Nennung)
 - c. Familie (7 pos. Nennungen von 4 Eltern; 6 neg. Nennungen von 6 Eltern)
 - d. Freunde (5 pos. Nennungen von 4 Eltern; 5 neg. Nennungen von 5 Eltern)
3. Religion/Esoterik/Spiritualität
 - a. sie ist immer noch als übernatürliches Wesen bei uns (12 Nennungen von 1 Elternteil)
 - b. übernatürliche Umgebung: "er wählte die Zeit des Todes", "die Sonne brach im Moment seines Todes durch" (2 Zitate von 1 Elternteil)
 - c. ich habe meinen Glauben verloren (1)
4. Professionelle psychologische Unterstützung (9 Zitate von 5 Eltern)
5. Recherche/Informationssammlung (9 Zitate von 4 Eltern)
6. Arbeit
 - a. die Arbeit hat mir geholfen, ins Leben zurückzufinden (2 Zitate von 2 Eltern)
 - b. ich habe nie meine volle Leistungsfähigkeit wiedererlangt (2 Zitate von 2 Eltern)

Noch am hadern

7. verpasste Gelegenheit, über den Tod zu sprechen (8 Zitate von 4 Eltern)
8. mangelndes Verständnis (3 Zitate von 3 Eltern)
9. Trauer über das Verhalten von Freunden/Familie (5 Zitate von 2 miteinander verheirateten Eltern)
10. Zweifel an der Wirksamkeit/Notwendigkeit der Behandlung (3 Zitate von 1 Elternteil)
11. finanzielle Beteiligung an einzelnen medizinischen Heilversuchen (1)
12. Trauer über mangelhafte Nutzung der letzten Monate mit dem Kind (1)

Fazit/Ausblick

13. wird nie bewältigt werden, aber es ist ok (10 Zitate von 9 Eltern)
14. ich habe es gut geschafft (8 Zitate von 6 Eltern)
15. es hat mich verändert/auf zukünftige Kämpfe vorbereitet (3 Zitate von 1 Elternteil)
16. ich kann immer noch nicht ganz begreifen, was passiert ist (2 Zitate von 1 Elternteil)
17. half mir, das zu schätzen, was ich noch habe (2 Zitate von 1 Elternteil)
18. froh, dass das Kind zu klein war, um es zu verstehen (2 Zitate von 1 Elternteil)
19. varia: ich möchte immer noch auf den neuesten Stand der Forschung über die Krankheit gebracht werden; es war ein absoluter Albtraum, ich habe kaum überlebt; mein Selbstvertrauen ist gestört, ich habe jetzt mehr Angst; ich habe meine eigenen Bewältigungsstrategien entwickelt und mit diesen geht es mir gut; ich bin dankbar für die intensive Familienzeit, die uns mehr zusammenwachsen ließ; Isolationserfahrung (je 1)

FAMCARE-2

Fragebogen Teil A (Information aus Krankenakte, ergänzt durch Angaben während Interview)

Demographische Daten

1. Alter des Elternteils
2. Alter des Patienten
3. Geschlecht des Elternteils
4. Geschlecht des Patienten
5. sozialer (sozio-kultureller) Hintergrund
 - a. Familienstand des Elternteils
 - b. Ethnischer Hintergrund der Familie
 - c. Ausbildungsniveau des Elternteils
 - d. Beruf des Elternteils
 - e. Beschäftigungsverhältnis des Elternteils
 - f. Durchschnittliches Jahreseinkommen des Elternteils
 - g. Wohngegend der Familie
 - h. Anzahl der zu betreuenden Kinder zu Hause
 - i. Religion
6. Vergangene Zeit seit der Diagnosestellung
7. Vergangene Zeit zwischen Diagnosestellung und Feststellung des Progresses
8. Vergangene Zeit zwischen Feststellung des Progresses und Todeszeitpunkt
9. Art der Behandlung
10. Teilnahme in Selbsthilfegruppen, Kirche o. ä.
11. Weitere Unterstützung vorhanden (z.B. Großeltern, Nachbarn etc.)
12. Zeitspanne, während der zu Hause ein Palliativdienst in Anspruch genommen wurde
13. Ort des Todes des Kindes

Fragebogen Teil B (zum Interview abgefragt, gefolgt von offenem Gespräch)

Spezifische Fragen, jeweils zum Zeitpunkt Diagnosestellung, Progress, Lebensende

(sz) sehr zufrieden, (z) zufrieden, (-) unentschieden, (su) sehr unzufrieden, (na) nicht anwendbar

	sz	z	-	u	su	na
1. Befinden des Patienten						
2. Befinden des Elternteils						
3. Wurden Ihre Familie und Ihr Kind zufriedenstellend/aus Ihrer Sicht ausreichend über seine Erkrankung und den zu erwartenden Verlauf der Krankheit aufgeklärt?						
4. Wurde ausreichend Information über zu erwartende Symptome oder Nebenwirkungen der Behandlung gestellt?						
5. Wie empfanden Sie die Wertschätzung der Würde Ihres Kindes seitens der behandelnden Ärzte/des Pflegepersonals/Palliativdienstes?						
6. Wie empfanden Sie den interdisziplinären Austausch innerhalb des Sie betreuenden Teams?						
7. Welche spezifischen Symptome traten auf?						
8. Wie und wie rasch wurde auf spezifische Symptome reagiert und konnten diese gelindert werden?						
9. Konnten Sie Ihre behandelnden Ärzte/des Pflegepersonals/des Palliativdienstes erreichen, wenn Bedarf bestand?						
10. Wie schätzen Sie die emotionale Unterstützung Ihres Kindes durch die behandelnden Ärzte/Pflegepersonal/Palliativdienst ein?						
11. Wie schätzen Sie Ihre eigene emotionale Unterstützung durch die behandelnden Ärzte/Pflegepersonal/Palliativdienst ein?						
12. Reagierten die behandelnden Ärzte/Pflegepersonal/Palliativdienst angemessen auf Veränderungen der Bedürfnisse Ihres Kindes?						

5. Literaturverzeichnis

1. Alridge J, Shimmon K, Miller M, et al. 'I can't tell my child they are dying'. Helping parents have conversations with their child. *Arch Dis Child Educ Pract Ed.* 2017; 102(4): 182-187.
2. Angelini P, Hawkins C, Laperriere N, et al. Post mortem examinations in diffuse intrinsic pontine glioma: challenges and chances. *J Neurooncol.* 2011; 101(1):75-81.
3. Aoun S, Bird S, Kristjanson LJ, et al. Reliability testing of the FAMCARE-2 scale: measuring family carer satisfaction with palliative care. *Palliat Med.* 2010; 24(7): 674-681.
4. Beaumont C and Nikolaichuk C. FAMCARE- and FAMCARE2-Guidelines. Palliative and End-of-Life Institute, Health Service Centre, Grey Nuns Hospital, Edmonton, AB. 2012. Available at: https://www.researchgate.net/profile/Cheryl_Nekolaichuk/publication/267944835_FAMCARE_and_FAMCARE2_Guidelines/links/5550ae2e08ae739bdb91f82e.pdf. Accessed June 09, 2022.
5. Bluebond-Langner M. The private worlds of dying children. Princeton, N. J.: Princeton University Press; 1978.
6. Buczkowicz P and Hawkins C. Pathology, molecular genetics, and epigenetics of diffuse intrinsic pontine glioma. *Front Oncol.* 2015; 5: 147.
7. Caretti V. Implementation of a multi-institutional diffuse intrinsic pontine glioma autopsy protocol and characterization of a primary cell culture. *Neuropathol Appl Neurobiol.* 2012; 39: 426-436.
8. Chibanda D, Weiss HA, Verhey R. Effect of a Primary Care-Based Psychological Intervention on Symptoms of Common Mental Disorders in Zimbabwe. A Randomized Clinical Trial. *JAMA* 2016; 316(24): 2618-2626.
9. da Silva FM, Jacob E, Nascimento LC. Impact of childhood cancer on parents' relationships: an integrative review. *J Nurs Scholarsh.* 2010; 42(3): 250-261.
10. Dresing T and Pehl T. Praxisbuch Interview, Transkription & Analyse. Anleitungen und Regelsysteme für qualitativ Forschende. 8. Aufl. Marburg; 2015. Available at: https://www.audiotranskription.de/wp-content/uploads/2020/11/Praxisbuch_08_01_web.pdf. Accessed June 09, 2022.
11. Easson WM. The dying child. The management of the child or adolescent who is dying. 2nd ed. Springfield, Illinois, USA: Charles C. Thomas; 1970.
12. Hoffman LM, Veldhuijzen van Zanten SEM, Colditz N, et al. Clinical, radiologic, pathologic, and molecular characteristics of long-term survivors of diffuse intrinsic pontine glioma (DIPG): a collaborative report from the International and European society for pediatric oncology DIPG registries. *J Clin Oncol.* 2018; 36(19): 1963-1972.
13. Husebø S, Mathis G, Klaschik E. Palliativmedizin. 6. Aufl. Heidelberg: Springer-Verlag GmbH Deutschland, 2017.
14. Kambhampati M. A standardized autopsy procurement allows for the comprehensive study of DIPG biology. *Oncotarget* 2015; 6(14): 12740-12747.
15. Kieran MW. Lessons learned from diffuse intrinsic pontine glioma: how a terrible disease forced us to think better. *Neuro Oncol.* 2017; 19(8): 1017-1018.
16. Kieran MW. Time to rethink the unthinkable: upfront biopsy of children with newly diagnosed diffuse intrinsic pontine glioma (DIPG). *Pediatr Blood Cancer* 2015; 62(1): 3-4.

17. Kreicbergs U, Valdimarsdóttir U, Onelöv E, et al. Talking about death with children who have severe malignant disease. *N Engl J Med.* 2004; 351: 1175-1186.
18. Kuckartz U. Einführung in die computergestützte Analyse qualitativer Daten. 1. Aufl. Wiesbaden: VS Verlag für Sozialwissenschaften/GWV Fachverlage GmbH; 2005.
19. Masera, G., Chesler, M. A., Jankovic, M., Ablin, A. R., Ben Arush, M. W., Breatnach, F., Spinetta, J. J. SIOP Working Committee on psychosocial issues in pediatric oncology: guidelines for communication of the diagnosis. *Medical and Pediatric Oncology* 1997, 28(5), 382-385.
20. Mayring P. Qualitative Inhaltsanalyse. Grundlagen und Techniken. 12. Aufl. Weinheim und Basel: Beltz Verlag; 2015
21. Monterosso L, and Kristjanson LJ. Supportive and palliative care needs of families of children who die from cancer: an Australian study. *Palliat Med.* 2008; 22(1): 59-69.
22. Müller K, Schlamann A, Guckenberger M, et al. Craniospinal irradiation with concurrent temozolomide for primary metastatic pediatric high-grade or diffuse intrinsic pontine gliomas. A first report from the GPOH-HIT-HGG Study Group. *Strahlenther Onkol.* 2014; 190(4): 377-381.
23. Niethammer D. Das sprachlose Kind. Vom ehrlichen Umgang mit schwer kranken und sterbenden Kindern und Jugendlichen. 1. Aufl. Stuttgart: Schattauer GmbH; 2008.
24. Perilongo G, Rigon L, Sainati L, et al. Topical Topic: Palliative and Terminal Care for Dying Children; Proposal for Better Care. *Medical and Pediatric Oncology* 2001; 37: 59-61.
25. Pohlkamp L, Kreicbergs U, Sveen J. Bereaved mothers' and fathers' prolonged grief and psychological health 1 to 5 years after loss—A nationwide study. *Psycho-Oncology.* 2019; 28:1530–1536.
26. Saiki-Craighill S. The personal development of mothers of terminal cancer patients: How Japanese women change through the experience of caring for and losing their children to cancer. *Qualitative Health Research* 2002; 12(6): 769-779.
27. Schröder H, Lilienthal S, Schreiber-Gollwitzer BM, et al. S3-Leitlinie Psychosocial Care in Pediatric Oncology and Hematology on behalf of: Gesellschaft für Pädiatrische Onkologie und Hämatologie (GPOH) 2019; AWMF-Registernummer: 025-002
28. Sewtz C, Muscheites W, Kriesen U, et al. Questionnaires measuring quality of life and satisfaction of patients and their relatives in a palliative care setting-German translation of FAMCARE-2 and the palliative care subscale of FACIT-Pal. *Ann Palliat Med.* 2018; 7(4): 420-426.
29. Spinetta, J. J., & Maloney, L. J. The child with cancer: patterns of communication and denial. *J Consult Clin Psychol* 1978, 46(6), 1540-1541.
30. Stevens MM, Rytmeister RJ, Proctor MT, et al. Children Living With Life-Threatening or Life-Limiting Illnesses: A Dispatch From the Front Lines. In: Corr CA and Balk DE (Hrsg). *Children's encounters with death, bereavement, and coping.* New York: Springer Pub; 2008: 147-166.
31. Vernick J and Karon M. Who's afraid of death on a leukemia ward? *Am J Dis Child* 1965; 109: 393-397.
32. Zernikow B. Palliativversorgung von Kindern, Jugendlichen und jungen Erwachsenen. 2. Aufl. Berlin Heidelberg: Springer-Verlag; 2013.

6. Erklärung des Eigenanteils

Die Arbeit wurde in der Klinik und Poliklinik für Pädiatrische Hämatologie und Onkologie unter der Betreuung von Herrn PD Dr. Uwe Kordes durchgeführt. Die Idee und das Studiendesign entwarf die Doktorandin mit Frau Dr. Maite Hartwig und Herr PD Dr. Kordes. Die Literaturrecherche erfolgte durch die Doktorandin. Die Konzeption der Datenerhebung inkl. Auswahl des Fragebogens und der Interviewform erfolgten durch die Doktorandin und Frau Dr. Hartwig. Die Erfassung der klinischen Daten aus der elektronischen Patientenakte, die Anschreiben und Terminierung der Elterninterviews wurden durch die Doktorandin durchgeführt. Das erste Interview führte Frau Dr. Hartwig im Beisein der Doktorandin, alle folgenden Interviews führte die Doktorandin allein. Die Transkription und Datenanalyse erfolgten durch die Doktorandin. Herr PD Dr. Kordes überprüfte die Gütekriterien. Das Manuskript zur Publikation wurde von der Doktorandin erstellt. Herr PD Dr. Kordes wirkte unterstützend bei der Korrektur mit. Alle Autoren diskutierten die Ergebnisse und trugen zum endgültigen Manuskript bei.

7. Danksagung

Mein besonderer Dank gilt den verwaisten Eltern, die mir so offen und freundlich von sich und ihren verstorbenen Kindern erzählt haben. Diese Gespräche waren auch persönlich für mich prägend.

Darüber hinaus bedanke ich mich bei meinem Doktorvater Herrn PD Dr. Uwe Kordes für die Möglichkeit der Promotion in der Kinderklinik des Universitätsklinikums Hamburg-Eppendorf und vor allem für die engagierte Betreuung, sein Vertrauen in mich und seine langjährige Geduld. Frau Dr. Maite Hartwig danke ich für ihre Einführung in die Kinderpalliativmedizin. Sie gewährte mir durch Gespräche und Hospitationen wertvolle Einblicke in diese spezielle Disziplin. Frau Dr. Hartwig war für mich vor allem während der Interviewphase und zur Auswertung der Daten eine große Stütze. Frau Prof. Dr. Corinna Bergelt vom Institut für Medizinische Psychologie des UKE danke ich für die Einarbeitung in die Qualitative Sozialforschung. Frau Dr. Annika Bronsema leistete fortwährend Inspiration und interessanten Gedankenaustausch, wofür ich ihr sehr dankbar bin.

Meinem ehemaligen Chef Herrn PD Dr. Fabian Fehlauer danke ich für seine Geduld und die unzähligen Freistellungen während der Arbeitszeit sowie motivierende und inspirierende Gespräche. Ich bedanke mich bei Herrn Prof. Dr. Bernd Alt-Epping für seine Zuversicht und seine Vorschläge zur Konkretisierung des Manuskripts. Herrn Prof. Dr. Ulrich Wahn danke ich für seine Ideen zur Wahl des passenden Journals. Frau Beate Lion hat mir einen Großteil der Literatur bereitgestellt, was mir viel Arbeit erleichtert hat und wofür ich ihr von Herzen danke.

Meiner Mutter und meinem Vater danke ich für ihre tiefe Anteilnahme und ihr Interesse an meiner Arbeit, ihre grenzenlose und liebevolle Unterstützung und Motivation. Ich hatte das Glück, von Zeit zu Zeit meine neuen Erkenntnisse und Gedanken mit der gesamten Familie und mit Freunden diskutieren zu können. Wir führten viele wichtige Gespräche über praktische Fragen, aber auch über den Sinn des Lebens, über den Tod sowie über Kinder und deren Wahrnehmung der Welt. Für diesen Austausch bin ich sehr dankbar. Er ist zum großen Teil in meine Arbeit mit eingeflossen.

8. Lebenslauf

15.06.1987	Geburt in Göttingen
2006	Abitur am Ev. Gymnasium zum Grauen Kloster, Berlin
2006 – 2008	Studium der Arabistik und Religionswissenschaften Freie Universität Berlin Georg-August-Universität Göttingen
2008 – 2015	Studium der Humanmedizin Georg-August-Universität Göttingen Christian-Albrechts-Universität zu Kiel
06.2015	Approbation als Ärztin
seit 2011	Verlagstätigkeit als Projektleitung, Lektorin und Autorin
seit 10.2015	Promotionsstudium Universität Hamburg, Medizinische Fakultät
seit 2017	Weiterbildung zur Fachärztin für Strahlentherapie und Radioonkologie
2017 – 2019	Strahlenzentrum Hamburg MVZ PD Dr. med. Fabian Fehlauer
seit 2019	Charité Universitätsmedizin Berlin Prof. Dr. med. Dr. h. c. Volker Budach Prof. Dr. med. Daniel Zips

9. Eidesstattliche Erklärung

Ich versichere ausdrücklich, dass ich die Arbeit selbständig und ohne fremde Hilfe verfasst, andere als die von mir angegebenen Quellen und Hilfsmittel nicht benutzt und die aus den benutzten Werken wörtlich oder inhaltlich entnommenen Stellen einzeln nach Ausgabe (Auflage und Jahr des Erscheinens), Band und Seite des benutzten Werkes kenntlich gemacht habe.

Ferner versichere ich, dass ich die Dissertation bisher nicht einem Fachvertreter an einer anderen Hochschule zur Überprüfung vorgelegt oder mich anderweitig um Zulassung zur Promotion beworben habe.

Ich erkläre mich einverstanden, dass meine Dissertation vom Dekanat der Medizinischen Fakultät mit einer gängigen Software zur Erkennung von Plagiaten überprüft werden kann.