

Zentrum für Psychosoziale Medizin
des Universitätsklinikums Hamburg Eppendorf
Institut und Poliklinik für medizinische Psychologie
Direktor: Prof. Dr. Dr. Uwe Koch-Gromus
Stellv. Direktorin: Prof. Dr. Monika Bullinger

Dissertation

Zur Erlangung des Grades eines Doktors der Humanmedizin

**„Evaluation der Versorgung von Patienten mit Multiplen
Hereditären Exostosen (MHE) und ihren Angehörigen“**

dem Fachbereich für Medizin der Universität Hamburg vorgelegt von

Juliane Madee
aus Hamburg

Hamburg, 2008

Angenommen von dem Fachbereich Medizin
der Universität Hamburg am: **29.05.2008**

Veröffentlicht mit Genehmigung des Fachbereichs
Medizin der Universität Hamburg

Prüfungsausschuss, die Vorsitzende:

Prof. Dr. M. Bullinger

Prüfungsausschuss: 2. Gutachter:

Prof. Dr. M. Augustin

Prüfungsausschuss: 3. Gutachter:

Prof. Dr. L. Meiss

Vorwort

Die multiple hereditäre Exostosenkrankheit (MHE) ist eine Systemerkrankung des Skeletts. Sie wird autosomal-dominant vererbt. Das Vorkommen in der Bevölkerung wird auf ungefähr 1:50.000 geschätzt. Eine Einwohnerzahl von 81 Millionen lässt also auf ca. 1.600 Erkrankte in Deutschland schließen.

Man geht davon aus, dass bei nur etwa zwei Drittel aller Betroffenen die Krankheit festgestellt wird. Das bedeutet, dass bei einem Drittel der Betroffenen MHE nicht als solches diagnostiziert beziehungsweise nicht ärztlich behandelt wird.

Während eine Vielzahl von organmedizinischen Untersuchungen zur Genetik und Orthopädie bereits vorliegen fehlen wissenschaftlich fundierte Aussagen zur Versorgung MHE-erkrankter Patienten und deren Angehörigen.

Dieser Aspekt wurde im Vergleich zur medizinischen Seite der Exostosenkrankheit noch nicht standardisiert beschrieben.

Ziel dieser Untersuchung ist die Erfassung und Beschreibung der Versorgung MHE-Erkrankter aus Sicht der Patienten und ihren Angehörigen sowie auf der Basis einer Expertenbefragung, um eventuelle Lücken und Mängel bezüglich der Versorgung aufzudecken.

Inhaltsverzeichnis

1	<u>Theoretischer Teil</u>	1
1.1	<u>MHE – Die Erkrankung</u>	1
1.1.1	Hintergrund und Geschichte	1
1.1.2	Genetik	4
1.1.3	Diagnosestellung	6
1.1.4	Therapie/Operationsindikationen	7
1.1.5	Begleit-/Folgeerkrankungen	8
1.1.5.1	Physische Folgeerkrankungen	8
1.1.5.2	Psychische Folgeerkrankungen	10
1.1.6	Die MHE Selbsthilfegruppe	11
1.1.6.1	Die Gründung	11
1.1.6.2	Ziele und Aufgaben	11
1.2	<u>Versorgungsforschung</u>	14
1.2.1	Weshalb Versorgungsforschung	14
1.2.2	Stellenwert der Versorgungsforschung in Deutschland	14
1.2.3	Definition der Versorgungsforschung	16
1.2.4	Ziele und Aufgaben der Versorgungsforschung ...	18
1.2.5	Versorgungsprozessgestaltung	20
1.2.6	Qualitätsmanagement in der Versorgungsforschung	21
1.2.7	Zielgrößen medizinischer Qualität	22
1.2.8	Zusammenfassung zentraler Aspekte	23
1.3	<u>Fragestellungen</u>	23

2	<u>Methodik</u>	25
2.1	<u>Pilotstudie</u>	25
2.1.1	Ansatz	26
2.1.2	Methodik Pilotstudie	26
2.1.3	Ergebnisse der Pilotstudie	27
2.1.4	Konsequenzen für die Hauptstudie	31
2.2	<u>Hauptstudie</u>	33
2.2.1	Design	33
2.2.2	Stichprobe	34
2.2.3	Messinstrumente	36
2.2.4	Durchführung	43
2.2.5	Auswertung	43
3	<u>Ergebnisse der Hauptstudie</u>	44
3.1	<u>Beschreibung der Gesamtstichprobe</u>	44
3.2	<u>Ergebnisse der Kategorie</u> <u>„betroffene Erwachsene“</u>	45
3.2.1	Stichprobe, Kategorie „betroffene Erwachsene“	45
3.2.2	Soziodemographie, Kategorie „betroffene Erwachsene“	45
3.2.3	Fragen zu medizinischen Aspekten, Kategorie „betroffene Erwachsene“	48
3.2.4	Fragen zur Versorgung, Kategorie „betroffene Erwachsene“	50
3.2.5	Zusammenfassung der Ergebnisse, Kategorie „betroffene Erwachsene“	54

3.3	<u>Ergebnisse der Kategorie</u>	
	<u>„Eltern betroffener Kinder“</u>	57
3.3.1	Stichprobe,	
	Kategorie „Eltern betroffener Kinder“	57
3.3.2	Soziodemographie,	
	Kategorie „Eltern betroffener Kinder“	57
3.3.3	Fragen zu medizinischen Aspekten,	
	Kategorie „Eltern betroffener Kinder“	59
3.3.4	Fragen zur Versorgung,	
	Kategorie „Eltern betroffener Kinder“	61
3.3.5	Zusammenfassung der Ergebnisse,	
	Kategorie „Eltern betroffener Kinder“	65
3.4	<u>Vergleich der Versorgungssituation bei MHE</u>	
	<u>der untersuchten Erwachsenenengruppen</u>	67
3.5	<u>Ergebnisse der Kategorie „Betroffene Kinder“</u>	70
3.5.1	Stichprobe, Kategorie „Kinder“	70
3.5.2	Soziodemographie, Kategorie „Kinder“	70
3.5.3	Fragen zur Versorgung, Kategorie „Kinder“	72
3.5.4	Zusammenfassung der Ergebnisse,	
	Kategorie „Kinder“	74
3.6	<u>Ergebnisse der Kategorie „Experten“</u>	76
3.6.1	Stichprobe, Kategorie „Experten“	76
3.6.2	Soziodemographie, Kategorie „Experten“	76
3.6.3	Beurteilung von Aussagen über die	
	Versorgung von MHE-Patienten,	
	Kategorie „Experten“	77
3.6.4	Zusammenfassung der Ergebnisse,	
	Kategorie „Experten“	83

4	<u>Diskussion der Ergebnisse</u>	86
4.1	<u>Zusammenfassende Diskussion</u>	86
4.1.1	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 1	88
4.1.2	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 2	90
4.1.3	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 3	93
4.1.4	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 4	95
4.1.5	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 5	96
4.1.6	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 6	97
4.1.7	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 7	101
4.1.8	Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 8	102
4.2	<u>Kritische Anmerkungen</u>	105
4.3	<u>Ausblick</u>	106
5	Zusammenfassung	109
6	Literaturverzeichnis	112
7	Abbildungsverzeichnis	118
8	Tabellenverzeichnis	119
9	Anlagenverzeichnis und Anlagen	4
10	Danksagung	4
11	Tabellarischer Lebenslauf	4
12	Erklärung	4

1 Theoretischer Teil

1.1 MHE – Die Erkrankung

1.1.1 Hintergrund und Geschichte

Die multiple hereditäre Exostosenkrankheit (MHE) ist eine Systemerkrankung des Skeletts unterschiedlicher Ausprägung. Diese Form der Exostosen wird autosomal-dominant vererbt (Ehrenfried, 1917). Das Vorkommen in unserer Bevölkerung wird häufiger beobachtet als bei anderen Rassen und auf ungefähr 1:50.000 geschätzt (Leube, 2003). Eine Einwohnerzahl von 81 Millionen lässt also auf ca. 1.600 Erkrankte in Deutschland schließen. Hierbei ist zu berücksichtigen, dass nur bei etwa zwei Drittel aller Betroffenen die Krankheit festgestellt und als MHE diagnostiziert wird. Bei dem verbleibenden Drittel wird die Erkrankung fehl diagnostiziert bzw. gar nicht ärztlich behandelt.

Einige isolierte Bevölkerungsgruppen wie die Chamorros auf Guam oder die Ojibway Indianer aus Pauingassi in Manitoba, Canada haben eine weitaus höhere Prävalenz mit 100 bis 1310 Erkrankungen pro 100 000 Einwohnern (Stieber et al., 2001).

Die Exostosenkrankheit ist auch bekannt unter dem Namen Osteochondrom.

„Das Osteochondrom ist ein kappenartig mit Knorpelgewebe überzogener knöcherner Vorsprung auf der Außenfläche des Knochens.“ (Khurana et al., 2002).

Man unterscheidet die solitäre von der hereditären Form (Shapiro et al. 1979). Histomorphologisch besteht zwischen den solitären und der multiplen Exostosenform kein Unterschied (Bader und Grill, 2000).

In der Literatur findet man synonym auch die Bezeichnungen „Multiple Kartilaginäre Exostosen“, „Multiple Osteochondrome“,

„Hereditary Multiple Exostoses“, „Familiäre Aclasia“ (Jaffé, 1943) usw.

Historisch war wahrscheinlich John Hunter der Erste, der MHE erwähnte. 1786 beschrieb er in seinen „Lectures on the principles of surgery“ einen Patienten mit multiplen Exostosen (Stieber et al., 2001). 1814 veröffentlichte Boyer die erste Beschreibung einer Familie mit MHE, 1825 folgte die Beschreibung einer zweiten Familie durch Guy. Die Bezeichnung „Multiple Hereditäre Exostosen“ lässt sich auf Virchow zurückführen, der diesen Namen 1876 einführte (Virchow, 1876). Die meisten klinischen Aspekte der Erkrankung wurden im späten 19. Jahrhundert beschrieben. Die Einführung in die amerikanische Literatur erfolgte 1915 durch Ehrenfried (Ehrenfried, 1917).

Einen großen Beitrag zur Differenzierung in der Pathologie von MHE zu ähnlichen kartilaginären Erkrankungen, wie zum Beispiel die Ollier's Krankheit, leistete 1943 Jaffé.

Bereits in einem Durchschnittsalter von etwa drei Jahren zeigen Betroffene eine klinische Manifestation, wie die Ausbildung zahlreicher, über das gesamte Skelettsystem verteilten, Knochenauswüchsen unterschiedlicher Größe.

Bei den Exostosen handelt es sich um gutartige Knochenvorsprünge oder Knochenausstülpungen, die gestielt oder breitbasig am Knochen, meist epiphysennah entstehen. Prinzipiell können alle Knochen betroffen sein, bevorzugt werden jedoch die langen Röhrenknochen (94% kniegelenksnah, 50% proximaler Humerus, 40-60% Unterarm mit Verkürzung der Ulna und Radiusdeviation, Skapula, Rippen, Wirbelsäule, Becken), während Gesicht und Schädel im Allgemeinen verschont bleiben (Parsch, 2003). Die Prädilektionsstellen der Exostosen zeigt Abbildung 1.

MHE - Die Erkrankung

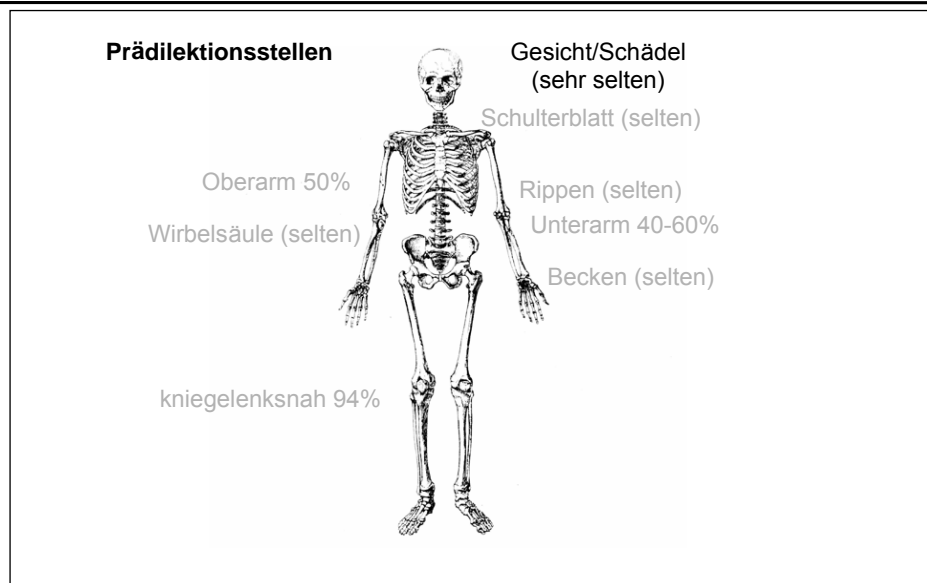


Abbildung 1: Prävalenzstellen der Exostosen

Die Exostosen zählen zu den gutartigen Knochentumoren. Das Ausmaß, die Größe und Anzahl dieser variiert stark von Patient zu Patient. Es sind Patienten beschrieben, die einen fast subklinischen Verlauf zeigen, mit der Ausbildung nur sehr weniger, kleiner Exostosen. Diese werden oftmals eher als kosmetisches Problem empfunden. Die funktionelle Beeinträchtigung steht hierbei im Hintergrund. Im Gegensatz dazu können größere oder ungünstig gelegene Exostosen zu schwerwiegenden, somatischen Beeinträchtigungen wie Schmerzen, Wachstumsstörungen, Druckatrophien (Usuren), Drucklähmungen oder Durchblutungsstörungen führen. Die meist gefürchtetste Komplikation ist die maligne (bösartige) Entartung der Knochenvorsprünge. Sie wird bis heute kontrovers diskutiert, ihre Häufigkeit wird aber mit 0,5%-2% (Peterson, 1989) als selten eingestuft.

1.1.2 Genetik

Bereits im Jahre 1925 erforschten die Mediziner Stocks und Barrington die Erkrankung Multiple Hereditäre Exostosen. Seit dieser Zeit ist bekannt, dass die Vererbung von MHE autosomal-dominant erfolgt und eine nahezu komplette Penetranz aufweist (Hennekam, 1991).

Multiple Exostosen beruhen auf einer Keimbahnmutation in unterschiedlichen Genen.

Gegenwärtig konnte man drei verantwortliche Gene identifizieren Ext1 auf Chromosom 8q24.1, Ext2 auf Chromosom 11p11-13 und Ext3 auf Chromosom 19p (Le Merrer et al., 1994).

Die Gene aus der EXT-Familie sind an der Synthese von Heparansulfat beteiligt. EXT1 und EXT2 codieren homologe Glycoproteine ähnlicher Größe und Struktur. Diese Glycoproteine werden ubiquitär im gesamten Skelettsystem exprimiert. Sie sind in der Membran des endoplasmatischen Retikulums lokalisiert und stehen in engem Zusammenhang mit der Aktivität der D-Glucuronyltransferase und der N-Acetyl-D-Glucosaminyltransferase. Heparansulfat ist ein komplexes Polysaccharid und beteiligt an verschiedenen Zellfunktionen wie beispielsweise Zelladhäsion, Zellproliferation und als Signal-Induktor für den growth-factor (Woods und Couchman, 1998).

Wuyts und Van Hul (Wuyts und Van Hul, 2000) entwickelten ein Modell zur Entwicklung der Exostosen auf der Basis einer Mutation im EXT-Gen. Zum besseren Verständnis führten sie ihre Untersuchung am tout-velu-Gen, das Äquivalent zum EXT-Gen der Drosophila, durch.

An der Differenzierung des Knorpelgewebes sind Signalproteine (hedgehog, Indian hedgehog) beteiligt. Das Signalprotein Indian hedgehog wird in Chondrozyten selbst exprimiert und gelangt per

diffusionem in das Perichondrium (Vortkamp et al., 1996). Dort kommt es über einen negativen Feedback-Mechanismus zur physiologischen Regulation der Chondrozytendifferenzierung. Wuyts und van Hul konnten zeigen, dass dieser Mechanismus durch eine Mutation im EXT-Gen und der damit einhergehenden Störung der Diffusion von Indian hedgehog in das Perichondrium gestört ist, mit der Folge einer abnormalen skelettalen Entwicklung und der Ausbildung von Osteochondromen.

Mindestens 74 Mutationen sind entdeckt, die in der Mehrzahl zu einem Kettenabbruch führen. Nahezu jede Familie besitzt ihre eigene Mutation.

Inwieweit eine Beziehung zwischen Genotyp und Phänotyp vorliegt, ist noch sehr unklar. Die sichtbare Ausprägung der Exostosen bei verschiedenen Individuen ist demnach selbst bei bekanntem Genotyp nicht vorhersehbar (Leube, 2003).

Eine Verknüpfung von MHE mit anderen genetischen Syndromen ist durchaus möglich. Während die ausschließliche Ausbildung von Exostosen die Folge nur kleiner Mutationen ist, können größere Mutationen der EXT-Gene durchaus ganze genetische Syndrome zur Folge haben. Multiple Exostosen werden gehäuft auch beobachtet bei Patienten mit dem Langer-Giedion-Syndrom (LGs), Tricho-Rhino-Phalangeal-Syndrom Typ II (TRP II) sowie dem DEFECT 11-Syndrom. Patienten mit TRP II zeigen neben den Exostosen zusätzlich eine mentale Retardierung, konisch geformte Epiphysen sowie eine atypische Facies (Langer et al., 1984). Dieses Syndrom ist die Folge einer Deletion des TRP-Gens welches proximal des EXT1-gens liegt. Eine vollständige Deletion des EXT2 Gens auf dem Chromosom 11p11-p12 führt zu dem Defect 11-Syndrom, welches neben den Exostosen zu craniofacialen Dysostosen und auch zu mentalen Retardierungen führt (Wuyts et al., 2000).

1.1.3 Diagnosestellung

Die Diagnose MHE kann sich unter Umständen als schwierig erweisen. Einige Familien berichten über Ärzte, die nicht in der Lage waren, die Diagnose MHE zu stellen. Stattdessen behandelten sie jedes Symptom und jede Nebenwirkung einzeln (Michelson und Wynn, 2001).

In vielen Fällen kann mit Hilfe einer ausführlichen Anamnese sowie der körperlichen Untersuchung bereits die Verdachtsdiagnose MHE gestellt werden. Dieser Verdacht erhärtet sich besonders bei genetischer Disposition des Patienten. Um die Diagnose MHE zu verifizieren, reicht in der Regel ein einfaches Röntgenbild, dem so genannten Projektionsradiogramm.

Die Computertomographie (CT) und Magnetresonanz-Tomographie (MRT) finden ihre Anwendung bei der Beurteilung von Exostosen am Körperstamm (Becken, Wirbelsäule), da die Projektionsradiographie in dieser Region keine detaillierte Beurteilung zulässt.

Über die genaue Beschaffenheit der Knorpelkappe der Exostosen kann am besten die Sonographie (Ultraschalluntersuchung) Aufschluss geben. Hierbei ist zu beachten, dass gerade bei sonographischen Untersuchungen die Erfahrung des Untersuchers eine entscheidende Rolle spielt. Auch bei der Diagnostik von begleitenden Komplikationen der Exostosen findet die sonographische Untersuchung ihre Bedeutung. Arterielle oder venöse Thrombosen, Aneurysma oder Pseudoaneurysma und auch das Vorhandensein von Bursitiden werden sonographisch diagnostiziert. Allerdings erhält man keine Informationen über den darunter liegenden Knochen.

Eine Untersuchungsmethode zur Darstellung der Gefäße mit eventuellen Verschlüssen durch Kompression einer Exostose auf das Gefäß ist die Angiographie. Hier ist jedoch besonders auf eine klare Indikationsstellung zu achten, da es sich um eine invasive

Untersuchungsmethode handelt, die zusätzlich mit verschiedenen, nicht unerheblichen Risiken einhergeht. Hier zu nennen sind insbesondere die anaphylaktische/ allergische Reaktion bis hin zum lebensbedrohlichen, anaphylaktischen Schock, sowie eine durch die Toxizität des Kontrastmittels entstehende Nierenschädigung, die in einem Nierenversagen enden kann.

Die Untersuchung mit der 2-(fluorid 18)-fluoro-2 desoxy-D-Glucose (FDG) Positronen-Emissions-Tomographie (PET) hat sich aufgrund der geringen Aussage und der hohen Kosten nicht bewährt.

Auch die histologische Untersuchung durch den Pathologen ist nur im Zusammenhang des Gesamtkortex sinnvoll, da sonst Fehlinterpretationen der Bilder kaum zu vermeiden sind.

1.1.4 Therapie/Operationsindikationen

Da Operationen immer lebensbedrohliche Gefahren für den Patienten bergen können, wie z. B. Narkosezwischenfälle, Blutungen oder Infektionen, ist hier die Indikationsstellung besonders streng. Grundsätzlich muss nicht jede Exostose operiert werden, da Patienten nicht selten multiple Lokalisationen aufweisen und so zahllose, nicht nutzbringende Operationen erleiden müssten. Im Falle einer funktionellen Beeinträchtigung durch die Exostose, wie bereits oben beschrieben, ist die Indikation zur Operation im Einzelfall gegeben (Parsch, 2003).

Operationsindikationen (Peterson, 1989)

- Schmerzen ausgehend von der Exostose
- Schmerzhaftes Bursa über der Exostose
- Abweichendes Wachstum (z.B. Valgusdeformität der Knieachse, Beinverkürzung) von der Exostose verursacht

- Eingeschränkte Gelenkbeweglichkeit von gelenknaher Exostose
- Sehnen, Nerv- oder Gefäßirritation durch Verklebung an der Exostose
- Eine offensichtliche kosmetische Beeinträchtigung durch die Exostose
- Rasche Größenzunahme

Eine Rezidivneigung der Exostosen nach operativer Entfernung wird diskutiert.

1.1.5 Begleit-/Folgeerkrankungen

Allgemein lassen sich die Folgeerkrankungen in psychisch und physisch einteilen. Sowohl die psychischen als auch die physischen Begleit-/Folgeerkrankungen stehen in enger Beziehung zum individuellen Ausmaß von der Erkrankung MHE.

1.1.5.1 Physische Folgeerkrankungen

Wie bereits oben erwähnt, handelt es sich bei der Exostosenkrankheit in der Regel um gutartige Knochentumoren. Dennoch kann mit der Erkrankung eine Reihe von Komplikationen einhergehen. Je nach Ausprägung der Exostosen variieren diese stark. Eine häufige Begleiterscheinung sind Schmerzen im Gebiet der Exostose. Diese werden in der Regel durch entzündliche Verletzungen des umliegenden Gewebes verursacht. Liegen die Exostosen in direkter Nachbarschaft von Sehnen, Nerven und Gefäßen können sie zu Kompressionen dieser Strukturen und somit zu Lähmungserscheinungen, Funktionsausfällen oder Schädigungen der betroffenen Region führen. In seltenen Fällen kommt es sogar zu einer Kompression des Spinalkanals, was mit erheblichen

Behinderungen einhergehen kann. (Ergun et al., 1997). Theoretisch kann jede Struktur durch Kompression einer Exostose beeinträchtigt sein. So beschreibt bereits 1963 der Wissenschaftler Salomon Obstruktionen der ableitenden Harnwege sowie des Gastrointestinaltraktes (Salomon, 1963). Beschrieben wurden auch Patienten mit Dysphagien (Schluckstörungen), verursacht durch größere Exostosen im Bereich der ventralen Halswirbelsäule (Barros et al., 1995), sowie Verläufe mit Auftreten eines Spontanhämorthorax (Einblutungen in den Brustkorb) als Folge von multiplen Exostosen der Rippen (Castells et al., 1993). Weitaus bedeutender ist jedoch die Tatsache, dass regelhaft ein ungleichmäßiges Körperwachstum in Erscheinung tritt. Studien zeigen, dass über 36,8% der Männer und 44,2% der Frauen mit MHE im Durchschnitt eine Körperlänge unterhalb der fünften Perzentile im Vergleich zur Allgemeinbevölkerung aufweisen (Wicklund et al., 1995). Anzumerken ist, dass die „Sitzgröße“ im Vergleich „Standgröße“ weniger abweichend ist, woraus resultiert, dass das Extremitätenwachstum disproportional zum Wachstum der Wirbelsäule ist (Shapiro et al., 1979). Erhebliche Beinlängendifferenzen (> 2 cm) in 10%-50% der Fälle sowie Deformitäten verschiedener Gelenke, vor allem das Hüft-, Knie- und Sprunggelenk betreffend, sowie Asymmetrien im Bereich des Brustkorbes und Beckengürtels sind typisch.

Es wird außerdem diskutiert, ob es bei Patientinnen mit MHE gehäuft zu Kaiserschnittgeburten kommen könnte. Dieses wird durch im kleinen Becken liegende Exostosen begründet, die den natürlichen Weg des Kindes durch den Geburtskanal hindern könnten.

1.1.5.2 Psychische Folgeerkrankungen

Im Gegensatz zu vielen anderen Erkrankungen ist MHE, abhängig von der Ausprägung, den Patienten häufig auf den ersten Blick anzusehen. Dies kann für den einzelnen eine sehr große psychische Belastung darstellen. Ängste und Unsicherheit bis hin zu Stigmatisierungserleben können die Folge sein. Eine eventuelle Einschränkung der Partizipation im sozialen Umfeld und damit eine deutliche Einschränkung der Lebensqualität durch die Exostosenkrankheit sowohl bei den Erkrankten selbst, wie auch bei ihren Angehörigen, sind vorstellbar. Beispiele hierfür finden sich im „Das MHE und ich Handbuch“, auf welches im nächsten Abschnitt genauer eingegangen wird.

Angst und Unsicherheit machen sich bei Betroffenen breit, da die Erkrankung MHE aufgrund ihrer Seltenheit weitgehend unbekannt ist. Das Bekanntmachen der Exostosenkrankheit kann eine weitere Lücke in der Versorgung der Patienten schließen.

Explorative Studien, die diesen Bereich abdecken, existieren bisher nicht.

Die Seltenheit der Erkrankung und die daraus resultierende Unsicherheit sowohl bei den Betroffenen selbst als auch eventuelle Unsicherheiten seitens der Haus – bzw. Kinderärzte, die in der Regel als primäre Ansprechpartner fungieren, führen dazu, dass Patienten gezwungen sind, sich selber Informationen über die Erkrankung zu beschaffen, um Entscheidungen über ihren weiteren Therapieverlauf mitbestimmen zu können. Einen wichtigen Beitrag hierzu kann die Selbsthilfegruppe leisten, die es den Patienten ermöglicht, Informationen auszutauschen, und die immer wieder neueste Erkenntnisse über MHE den Mitgliedern zugänglich macht.

1.1.6 Die MHE Selbsthilfegruppe

1.1.6.1 Die Gründung

Am 25. September 2002 wurde die "Bundesselbsthilfevereinigung *Multiple kartilaginäre Exostosen (Osteochondrome)*" in das Vereinsregister des Amtsgerichts Oldenburg eingetragen.

Doch diesem geht ein langer Weg voraus. Bereits im Jahre 2000, wurde bundesweit die Gründung einer Selbsthilfegruppe (SHG) für die von MHE Betroffenen und deren Angehörige vollzogen (<http://www.exostosen.de>).

Im Laufe des Jahres 2001 wurde die SHG im Zuge ihrer Öffentlichkeitsarbeit wiederholt und von verschiedenen Seiten auf die Möglichkeit, als bundesweit arbeitende Selbsthilfegruppe finanzielle Unterstützung zu bekommen, hingewiesen. Auch den Hinweis auf die fehlende Rechtssicherheit und Seriosität einer "nur" Selbsthilfegruppe für Menschen und Institutionen, die mit ihnen zusammenarbeiten wollten, hörte sie oft.

So kam die "verbindliche Rechtsform", also eine Vereinsgründung ins Gespräch, die im darauf folgendem Jahr verwirklicht wurde.

1.1.6.2 Ziele und Aufgaben

Ein wichtiger Aspekt der Arbeit der Selbsthilfegruppe stellt der persönliche Austausch der Betroffenen und deren Angehörigen untereinander dar. Zu diesem Zweck werden regelmäßig regional und jährlich bundesweit Treffen organisiert. Weiterhin gibt es eine

Adressenaustauschliste, in die Betroffene aufgenommen werden, die mit der Weitergabe ihrer Adressen einverstanden sind. Diese Adressenaustauschliste ermöglicht einen intensiven Kontakt zwischen den Betroffenen und deren Angehörigen, der so durch das jährliche Treffen nicht ausreichend gegeben ist.

Des Weiteren arbeitet die SHG daran, Informationen über MHE und Erfahrungen mit der Erkrankung zu verbreiten und Interessierten zugänglich zu machen.

- An erster Stelle stehen dabei die Informationen auf den **Internetseiten www.exostosen.de**. Hier findet man ein weitreichendes Spektrum beginnend bei wissenschaftlichen Abhandlungen bis hin zur Bewältigung von Alltagsproblemen.
- Aktuelle Informationen werden durch einen per E-Mail versandten "**EXOSTOSEN-Rundbrief**" verbreitet.
- Ausführlicher können aktuelle Themen in der Zeitschrift "**EXOSTOSEN im BLICK.**" behandelt werden.
- Einzelne Veröffentlichungen zur Exostosenkrankheit können sowohl als Papier-Kopie oder als elektronische Datei erworben oder auch als **Bibliographie auf CD-ROM** von der SHG ausgeliehen werden.
- Ein **Informationsfaltblatt** bietet die Möglichkeit zu einer ersten inhaltlichen Annäherung an die Krankheit und an die Selbsthilfe.
- Eine etwas ausführlichere Übersicht in gedruckter Form beinhaltet die **Informationsmappe <EXOSTOSEN-Selbsthilfe>**
- Eine weitere Möglichkeit zur Informationsgewinnung stellen die Seiten mit den ausgesuchten **Links** dar, die auf der Website der SHG unter dem Menüpunkt "Selbsthilfe" zu finden sind.

Ein weiteres Ziel ist es, auch das soziale Umfeld der Erkrankten mit einzubeziehen. „Das MHE und ich Handbuch“ ist ein Berater für Familie, Freunde, Lehrer und Klassenkameraden von MHE-Betroffenen. Sowohl Hintergrund und Informationen über die Erkrankung als auch eine Reihe von Erfahrungsberichten Erkrankter und Angehöriger erlauben einen kurzen Einblick in das Leben mit MHE.

Dieses „MHE and Me Handbook“ wurde mit der Erlaubnis von „MHE and Me“, einer amerikanischen Selbsthilfegruppe für Kinder mit MHE und deren Familien, übersetzt und über die Seite der deutschen SHG im Internet zugänglich gemacht.

Professionell unterstützt wird die SHG durch Ärzte verschiedener Fachrichtungen wie z.B. Orthopädie, Chirurgie oder Pädiatrie. Außerdem bietet ein psychologischer Beirat seine professionelle Hilfe und Unterstützung an. Erleichtert wird diese Hilfe unter anderem durch eine psychosoziale Beratung per Telefon durch eine Fachkraft, die es ermöglicht, sich, falls gewünscht anonym, beraten zu lassen.

Durch einen Betroffenenkataster bekommen die Mitglieder die Möglichkeit, sich untereinander auszutauschen, Adressen ihrer behandelnden Ärzte weiterzuleiten, um somit die Arztwahl zu erleichtern. Dies kann wiederum eventuelle Verzögerungen in der Behandlung verringern.

Insgesamt trägt die SHG wesentlich dazu bei, die Versorgung der MHE-Erkrankten zu verbessern.

1.2 Versorgungsforschung

1.2.1 Weshalb Versorgungsforschung

Die Lage im deutschen Gesundheitswesen zeichnet sich derzeit unter Anderem dadurch aus, dass der Vielfältigkeit der Probleme bei der Versorgung kranker Menschen keine hinreichenden Lösungsansätze gegenüber stehen. „Die großen Akteursgruppen in diesem Feld – Praktiker, Politiker und Wissenschaftler – haben bisher keine schlüssige Antwort auf die drängende Frage gefunden, wie die ökonomischen und qualitätsbezogenen Probleme im Gesundheitswesen gelöst werden können“ (Pfaff, 2003). Dies liegt sowohl an der Komplexität der Problematik als auch an einer begrenzten Kapazität auf Seiten des Gesundheitswesens. Letzteres ist wiederum durch eine mangelnde Problemverarbeitungskapazität im Sinne eines Fehlens von ausreichend Daten und mangelndem Wissen über die Versorgungssituation und ihrer inneren Struktur mit verursacht.

Hier setzt die Versorgungsforschung an. Ihr Ziel ist es, anwendungsnahes Wissen über die Praxis der Kranken- und Gesundheitsversorgung zu gewinnen und der Öffentlichkeit zugänglich zu machen. Zu diesem Zweck wird eine Brücke zwischen den sozialwissenschaftlichen Theorien, der klinischen Medizin und dem Wissen der Versorgungspraktiker geschlagen (SVR, 2002).

1.2.2 Stellenwert der Versorgungsforschung in Deutschland

In Deutschland besteht trotz aller Bemühungen in den letzten Jahren ein großer Nachholbedarf auf den Gebieten der Gesundheitssystem- und der Versorgungsforschung.

Eine an internationale Standards angepasste Versorgungsforschung gibt es erst seit wenigen Jahren (Hurrelmann und Laaser, 1998). Mit sechs Millionen Euro fördern sowohl Krankenkassen als auch das Bundesforschungsministerium seit 1999 Versorgungsforschungsprojekte in Deutschland. Diese Projekte gliedern sich in zwei Phasen. Die erste Förderphase befasste sich unter Anderem mit dem Krankheitsbild der Schizophrenie oder Stürzen in Pflegeheimen. Die laufenden Projekte der zweiten Phase betreffen beispielsweise die Versorgung chronisch kranker Menschen oder Qualitätssicherung am Beispiel Rheuma (Rieser, 2005).

Der Deutsche Ärztetag entschied Anfang Mai 2005, eigenständige Projekte der Versorgungsforschung in den nächsten sechs Jahren mit weiteren 4,5 Millionen Euro zu fördern (Deutsches Ärzteblatt, 2005). In den USA hingegen werden bereits seit 1950 beträchtliche finanzielle Mittel für die Versorgungsforschung von den zuständigen National Institutes of Health (NIH) bereitgestellt. Im Jahr 1999 beliefen sich allein die staatlichen Mittel für die Versorgungsforschung auf ca. 490 Millionen Dollar; eine Summe, die von amerikanischen Experten immer noch als zu gering angesehen wird (Hadley, 2000). Nach Meinung einiger amerikanischer Fachleute ist eine effektive und effiziente Gesundheitsversorgung in höherem Maße von den Erkenntnissen der Versorgungsforschung als von denen der biomedizinischen Forschung abhängig (Hadley, 2000).

Ähnlich ist die Entwicklung in anderen Ländern. Bereits 1988 erfolgte in Großbritannien die Etablierung eines speziellen Förderprogramms für Versorgungsforschung, mit dem Ziel, die finanziellen Mittel auf 1,5% des National Health Services-Budget aufzustocken (Crombie und Davies, 1997).

Die immer noch mangelhafte Situation in Deutschland wurde auch in einer Stellungnahme der ärztlichen Zentrale zur Qualitätssicherung (ÄZQ) aufgegriffen. Unter Anderem wird hier die unzureichende Anpassung der Leistungsangebote an die Bedürfnisse der Patienten als wesentliche Ursache für Versorgungsmängel genannt. Allerdings kommt die ÄZQ zu dem Ergebnis, dass Aspekte der Über-, Unter- und Fehlversorgung nur dann wissenschaftlich fundiert beurteilt werden können, wenn Projekte zur Evidenzbasierung medizinischer Verfahren sowie zur Reorganisation von Versorgungsprozessen in Zukunft verstärkt durchgeführt werden (ÄZQ, 2000).

Doch nicht nur deutsche Ärzteverbände und Politiker erkennen vermehrt die Bedeutung der Versorgungsforschung. Auch an deutschen Hochschulen setzt man sich vermehrt mit der Thematik der Versorgungssituation auseinander. Mit dem Aufbau neuer Strukturen für die Forschung in den Gesundheitswissenschaften an deutschen Universitäten konnten die Voraussetzungen für eine qualitativ hochwertige, an internationalen Standards orientierte Forschung geschaffen werden (Hurrelmann und Laaser, 1998).

Allerdings ist hier anzumerken, dass Versorgungsforschung bei häufigen Krankheiten wie Diabetes oder Asthma weitaus mehr gefördert wird als bei seltenen Erkrankungen wie z.B. MHE. Da so seltene Erkrankungen relativ unbekannt sind rücken sie zu weit in den Hintergrund, was für die Betroffenen eine weitere Schwierigkeit im Umgang mit ihrer Erkrankung darstellt.

1.2.3 Definition der Versorgungsforschung

Versorgungsforschung kann als jenes Teilgebiet der Gesundheitssystemforschung angesehen werden, das sich auf der Mikroebene des Gesundheitssystems, insbesondere auf die

Krankenhäuser, Arztpraxen oder einzelne Gesundheitstechnologien bezieht. Gegenstand der Versorgungsforschung ist die Kranken- und Gesundheitsversorgung und damit sozusagen die *letzte Meile* des Gesundheitssystems. Die Faktoren, welche diese *letzte Meile* zum Patienten langfristig mitprägen, wie die intermediären Institutionen (Krankenkassen, Ärzteverbände etc.) und die nationale Gesundheitspolitik, sind nicht direkt Gegenstand der Forschung. Sie gehen jedoch als Rahmenbedingungen der konkreten Krankenversorgung in die wissenschaftlichen Untersuchungen ein.

Unter Krankenversorgung wird die Betreuung, Pflege, Diagnostik, Behandlung und Nachsorge eines kranken Menschen durch medizinisches und nicht-medizinisches Personal im Rahmen gesellschaftlich legitimierter Institutionen der Krankenversorgung verstanden. Dies schließt auf jeden Fall alle medizinischen und nicht-medizinischen Einrichtungen ein, die ihre Leistungen über die gesetzlichen und privaten Krankenkassen abrechnen können. Die Krankenversorgung unterteilt sich in eine **medizinische** Versorgung (durch *Ärzte, Pflegepersonal, Physiotherapeuten* etc.) und eine **psychosoziale** Versorgung (z.B. durch *Psychotherapeuten* oder *Selbsthilfeorganisationen*). Versorgungsforschung kann definiert werden als eine grundlagen- und problemorientierte, fachübergreifende Forschung, welche die Kranken- und Gesundheitsversorgung und ihre Rahmenbedingungen

- beschreibt
- kausal erklärt und aufbauend darauf
- Versorgungskonzepte entwickelt,
- deren Umsetzung begleitend erforscht und/oder
- unter Alltagsbedingungen evaluiert“ (ZVFK, 2007).

1.2.4 Ziele und Aufgaben der Versorgungsforschung

Die Versorgungsforschung ist ein Forschungsgebiet, das die Kranken- und Gesundheitsversorgung beschreiben, erklären und verbessern will. Sie beschreibt und analysiert den Weg des Patienten durch das Gesundheitssystem mit dem Ziel, in allen Versorgungsbereichen, von der Mikro- bis zur Makroebene, Einflussfaktoren zu identifizieren (Koch, 2003). Die Makro- und Mesoebene beziehen sich auf das Versorgungssystem sowie die einzelnen Versorgungsinstitutionen. Dazu zählen Krankenkassen, Spitzenverbände der Krankenkassen, die Ärzteverbände aber auch *Selbsthilfeorganisationen*.

Um das Versorgungssystem als Gegenstand der Versorgungsforschung noch besser zu verstehen und fassen zu können, ist es nützlich, einen klassischen Ansatz der Systemtheorie zu verwenden. Danach besteht das Versorgungssystem aus einer nach außen abgrenzbaren Gesamtheit von Elementen, die in Verbindung stehen. So kann das Versorgungssystem als Black Box betrachtet werden. Sie nimmt von außen Input auf, verarbeitet diesen innerhalb des Systems (Throughput) und gibt den auf diese Weise verarbeiteten Input als Output wieder an die Umwelt ab. Der Input besteht unter Anderem aus Personal, Material, Geld, Informationen und Patienten. Den gegebenen Input muss das Versorgungssystem so gezielt verändern, dass der gewünschte Output entsteht: die Versorgungsleistung. Ein wichtiges Ziel der Black- Box-Perspektive ist die Bestimmung der Effizienz des Versorgungssystems, verstanden als Verhältnis zwischen Input und Output (Pfaff, 2003).

Versorgungssystem

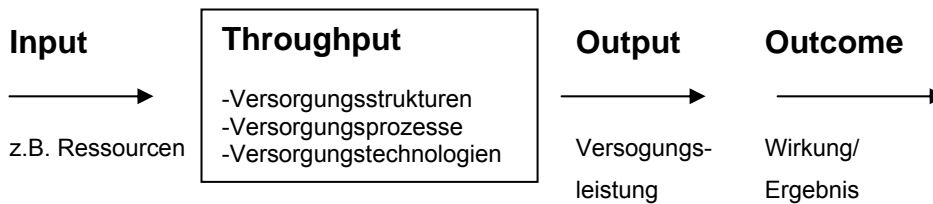


Abbildung 2: Das systemtheoretische Modell des Versorgungssystems

Organisationen und Institutionen auf der Makro- und Mesoebene des Gesundheitssystems gehören nur dann zum Gegenstand der Versorgungsforschung, wenn sie die letzte Meile der Leistungsbringung entscheidend mitprägen und als Einflussfaktoren zur Erklärung der Versorgungssituation notwendig sind (Pfaff, 2003). Hauptbestandteil der Versorgungsforschung ist die Mikroebene. Sie umfasst die Versorgungsinteraktion in Krankenhäusern oder Arztpraxen. Auch in dieser Untersuchung wird sich das Augenmerk im Wesentlichen auf die Mikroebene, d.h. die Arzt – Patienten – Interaktion, richten. Weitere Informationen hinsichtlich der Wichtigkeit und der Bedeutung der Arzt – Patienten – Interaktion bzw. des so genannten „*shared – decision – making*“ finden sich im Internet unter www.patient-als-partner.de.

Eine weitere wichtige Funktion der Versorgungsforschung ist die „Brücken-Funktion“. Sie verbindet z.B. klinische Forschung mit Public – Health - Forschung, bringt die drei Ebenen (Mikro, Meso, Makro) in einen Zusammenhang und schlägt eine Brücke zwischen Grundlagenforschung und anwendungsorientierter Forschung (Koch, 2003). Auch in der psychosozialen Medizin gewinnt die Versorgungsforschung immer mehr an Bedeutung. Sie zeigt die Prävalenz psychischer Störungen sowie Inanspruchnahme professioneller Hilfe und schafft sowohl strukturelle Voraussetzungen

als auch die Sicherung der Qualität des psychotherapeutischen Versorgungssystems (Koch, 2003).

Zusammenfassend zählt die Beschreibung der Versorgungssituation und der Versorgungsprobleme zu den Grundaufgaben der Versorgungsforschung. Sie ist leider in den Gesundheitswissenschaften wie der Medizin bisher zu stark vernachlässigt worden (ZVFK, 2003).

1.2.5 Versorgungsprozessgestaltung

Das Spektrum der Versorgungsforschung reicht von der Bedarfsforschung über die Evaluation von Versorgungsleistungen, die Technologiebewertung bis hin zum Qualitätsmanagement.

Für die vorliegende Untersuchung lassen sich als besonders relevante Fragestellungen der Versorgungsforschung identifizieren:

- Wie verlaufen einzelne Kernprozesse der medizinischen Versorgung?
- Auf Basis welcher Information werden diese Prozesse durchgeführt?
- Wie steht es um Patientenorientierung innerhalb der Durchführung von Kernprozessen?
- Wie „gleichberechtigt“ verläuft die Arzt-Patienten-Interaktion?

Als Kernprozesse ärztlichen Handelns bezeichnet man diejenigen Tätigkeiten, die für die Zielerreichung von relevanter Bedeutung sind (Badura et al., 2001).

Sieht man das Gesundheitswesen als ein personenbezogenes Dienstleistungssystem, so werden Leistungen im Bereich der Information, Beratung, Behandlung, Rehabilitation und Pflege erbracht. Diese Kernprozesse verlaufen in direkter Kommunikation

zwischen Erbringer und Adressat, d.h., sie verlaufen koproduktiv. Dies wiederum bedeutet, die Erfolge ärztlichen Handelns sind im Wesentlichen auch von den motivationalen Voraussetzungen der Patienten abhängig. Professionelles ärztliches Handeln verbindet sich mit den koproduktiven Potentialen der Patienten, welche verstärkt mobilisiert werden müssen (Bauer, 2003).

Je komplexer ein Kernprozess, je zahlreicher die involvierten Berufsgruppen, desto wichtiger wird der Faktor Organisation und die patientengerechte Planung. Die Vorbereitung, Gestaltung, der Ablauf und die Nachbereitung der Kernprozesse sind für Qualität und Effizienz des gesamten Gesundheitswesens von grundlegender Bedeutung (Baudisch, 1998).

Bisher waren der Kostendruck und die davon ausgehenden Entscheidungszwänge die zentralen Motive für Prozessanalysen im Gesundheitswesen. Doch immer mehr setzt sich die Auffassung durch, dass die systematische Qualitätsentwicklung ein zentrales Anliegen eines modernen Gesundheitswesens – und damit auch ein zentrales Anliegen der Versorgungsforschung ist (Laaser und Schwalbe, 2000).

1.2.6 Qualitätsmanagement in der Versorgungsforschung

Eine eindeutige und allgemein akzeptierte Definition des Begriffes „Qualität“ ist trotz des häufigen Gebrauchs dieses Wortes bis heute nicht gegeben. Viel mehr lassen sich diverse Definitionsversuche in der Literatur finden. Eine weithin akzeptierte Interpretation von Qualität im Gesundheitswesen lautet: „Qualität ist der unter Anwendung des derzeitigen Wissens vom medizinischen Versorgungssystem erreichte Grad der Wahrscheinlichkeit, für den Patienten erwünschte Therapieresultate zu erzeugen und

unerwünschte Behandlungsergebnisse zu vermeiden“ (US Joint Commission, 2005). Einen weiteren, etwas einfacheren Definitionsversuch gibt die Bundesärztekammer mit der Formulierung, Qualität beinhalte „ein Vermeiden von unnötigem Risiko und Aufwand bei Erreichen eines erreichbaren Zieles“ (Bundesärztekammer, 1997). Hieraus ergibt sich, dass es bei der Beschreibung von Qualität immer auch auf die Sicht des Betrachters ankommt und somit die Objektivität erschwert wird. In der vorliegenden Studie soll die Qualität der Versorgung sowohl aus Sicht der Patienten als auch aus Sicht der behandelnden Ärzte erfasst werden.

1.2.7 Zielgrößen medizinischer Qualität

Medizinische Qualität kann daran gemessen werden, in wie weit die Erwartungen des Patienten erfüllt und dessen Ziele erreicht werden. Weitere Parameter sind die Verbesserung des Krankheitszustandes durch technische und klinische Handlungen sowie die Effizienz der hierzu eingesetzten finanziellen Mittel. Es gibt also im Rahmen des Qualitätsmanagements bei der Bewertung medizinischer Intervention drei Hauptgesichtspunkte:

- eine *patientenorientierte* Qualität,
- eine *klinische* Qualität und
- eine *ökonomische* Qualität (Bauer und Bach, 1999).

So stellt bei dieser Untersuchung die Evaluation der Patientenzufriedenheit mittels Fragebögen den **patientenorientierten** Qualitätsparameter dar, der Erfolg der unterschiedlichen Behandlungen repräsentiert die klinische Qualität und ein kurzer Krankenhausaufenthalt oder die seltene

Inanspruchnahme notfallmedizinischer Maßnahmen steht für eine gute ökonomische Qualität.

1.2.8 Zusammenfassung zentraler Aspekte

- Es besteht im Bereich der Versorgungsforschung in Deutschland ein Nachholbedarf, insbesondere bezüglich seltener Erkrankungen wie MHE.
- Die Mikroebene des Versorgungssystems soll besonderes Augenmerk finden. Hierzu zählen vor Allem die Versorgung in Arztpraxen, psychosozialen Einrichtungen sowie der Stellenwert der SHG.
- Da MHE eine seltene, eher unbekannte Erkrankung ist, ist es erstrebenswert, die Arzt – Patienten – Interaktion zu stärken. Je mehr sich die Patienten in den Behandlungsprozess einbringen können, desto geringer werden eventuelle Unzufriedenheit bzw. Unsicherheit seitens der Patienten.

1.3 Fragestellungen

Es wird vermutet, dass die derzeitige Versorgungssituation MHE-Erkrankter besonders im Bereich der Mikroebene - durch Ärzte, Therapeuten, Selbsthilfegruppen - so lückenhaft ist, dass die MHE-Betroffenen und deren Angehörige sich oft mit der Problematik ihrer Erkrankung alleine fühlen. Durch mangelnde Informationen und Unwissenheit der behandelnden Ärzte macht sich Unsicherheit bei den Erkrankten und deren Angehörigen breit.

Häufig ist der Weg zur Diagnose MHE lang und steinig. Das Aufsuchen zahlreicher Spezialisten wie Kinderärzten, Orthopäden, Chirurgen, Radiologen, oder Allgemeinärzten ist nicht selten erforderlich, und selbst dann wird MHE unter Umständen nicht richtig

diagnostiziert. Doch auch wenn die Diagnose gestellt wird sehen sich die Betroffenen einer Menge Fragen und Ängsten gegenüber. Informationen über die Erkrankung sind rar, was dazu führt, dass die Patienten bzw. deren Angehörige nicht ausreichend mit ihren behandelnden Ärzten über auf sie zukommende Entscheidungen diskutieren können. Durch mangelndes koproduktives Potential seitens der Patienten ist eine gemeinsame Therapieplanung nicht möglich. Allerdings gehört die Berücksichtigung der Erwartungen, Werte, Ziele und Präferenzen der Betroffenen inzwischen zum programmatischen Standard in der Gesundheitsversorgung. Eine gemeinsame Entscheidungsfindung von Arzt und Patient bei der Auswahl von Behandlungszielen und –maßnahmen ist erstrebenswert und soll die Partizipation des Patienten stärken („shared – decision – making“) (Faller, 2003).

Inwieweit die Unsicherheit und Unwissenheit seitens der Patienten diesen Zielen zur Optimierung der Versorgung entgegen wirken und ob die Versorgung durch Ärzte, Selbsthilfegruppen oder psychologischer Beratung bei MHE-Erkrankten lückenhaft ist, soll in der vorliegenden Studie erfasst werden. Dafür wird die derzeitige Lage der Situation bezüglich der medizinische Versorgung, Bedarfsfragen und Beratungsangeboten aus Sicht der betroffenen Erwachsenen, Eltern betroffener Kinder sowie der Kinder selbst, evaluiert und für die Öffentlichkeit zugänglich gemacht.

Zudem wird zur Gegenüberstellung zur Patientensicht auch die Versorgungssituation aus Sicht der behandelnden Ärzte erfasst und beschrieben, um möglichst ein vollständiges Bild der Qualität der Versorgung von MHE-Erkrankten zu erreichen.

Die Reihenfolge der folgenden Fragestellungen ergibt sich aus der Reihenfolge der Fragen aus den Interviews.

Konkret werden folgende Fragestellungen in dieser Studie verfolgt und diskutiert:

1. Ist die Betreuung MHE-Erkrankter durch Haus- und/oder Kinderärzte zufrieden stellend?
2. Ist die Behandlung durch den Facharzt/ Spezialisten zufrieden stellend?
3. Ist die medikamentöse Versorgung MHE-Betroffener zufrieden stellend?
4. Ist die chronische Erkrankung eines Familienmitgliedes eine finanzielle Belastung?
5. Ist ein nicht gedeckter Bedarf an nicht-ärztlichen Leistungen vorhanden?
6. War bzw. ist die Art der Diagnosestellung zufrieden stellend?
7. Ist die Unterstützung der MHE-betroffenen Kinder durch die Schule bzw. den Kindergarten gegeben?
8. Ist die Qualität der Gesundheitsversorgung in Bezug auf MHE insgesamt zufrieden stellend?

2 Methodik

2.1 Pilotstudie

Für die Datenerhebung der gesamten Studie wurde ein zweistufiges Vorgehen gewählt. Zunächst erfolgte im September 2003 eine explorative Erhebung von Daten einiger weniger Studienteilnehmer. Schwerpunkte aus dieser Erhebung bilden die Grundlage für die darauf folgende Hauptuntersuchung.

2.1.1 Ansatz

Ziel dieser ersten, vorangestellten Erhebung war es, das Interesse von Betroffenen und ihren Angehörigen an einer umfassenden Studie zur Erfassung der Lebens- und Versorgungsqualität zu ermitteln. Weiterhin galt es zu explorieren, welche Themenbereiche aus eigener Sicht besondere Aufmerksamkeit finden sollten, da hier Probleme und Schwierigkeiten im Umgang mit der Erkrankung im Alltag oder in der Versorgung auftreten können. Die Ergebnisse dieser Voruntersuchung sollten in die weiterführende, ausführlichere Interviewstudie einfließen.

2.1.2 Methodik Pilotstudie

Mittels einer Teilnehmerinformation (Anlage A) und eines Kontaktbogens (Anlage B) wurden über die Internetseite der SHG (<http://www.exostosen.de>) sowie über eine andere Studienkohorte (Leube, 2003) potentielle Teilnehmer an der Vorstudie angesprochen, über den Studieninhalt informiert und im Einzelfall um die Teilnahme an einem kurzen Interview gebeten. Die Vorstudie erfolgte an 11 Teilnehmern (Angehörige und Betroffene) auf der Basis eines halbstandardisierten Interviewfragebogens (siehe hierzu Anlage C).

Der Fragebogen unterteilt sich in einen allgemeinen, soziodemographischen Teil und einen speziellen Teil, der sich im Wesentlichen mit dem Alltagsleben und MHE beschäftigt. Alle Teilnehmer wurden telefonisch kontaktiert, die Fragen wurden vorgelesen und die Antworten protokolliert. Die Daten wurden anonymisiert in eine Datenbank eingegeben und mittels SPSS Version 11.5 deskriptiv ausgewertet.

2.1.3 Ergebnisse der Pilotstudie

Die Erhebung fand im September 2003 statt. Es nahmen 11 Personen im Alter zwischen 15 und 52 Jahren teil, davon sind sechs Personen an MHE erkrankt und fünf angehörig. Zwei der Teilnehmer, 15 und 19 Jahre alt, wurden aufgrund ihres Alters bzw. ihres Verhaltens der Gruppe „Kinder“ zugeordnet. Beide sind an MHE erkrankt. Die Gruppe „Erwachsene“ besteht aus 2 (22,2%) Männern und 7 (77,8%) Frauen. Davon waren 88,9% verheiratet und 11,1% geschieden bzw. getrennt lebend. Ein Teilnehmer hat als höchsten Schulabschluss einen Realschulabschluss, 5 haben Abitur, 2 haben einen Haupt-/ Volksschulabschluss und eine/r ist ohne Schulabschluss. Über einen Hochschulabschluss verfügen 55,6%. 33,3% der Probanden haben eine berufliche Ausbildung bzw. eine Lehre gemacht, einer verfügt über keine Berufsausbildung. Etwa ein Drittel der Teilnehmer sind mindestens halbtags erwerbstätig, davon ca. die Hälfte als Angestellte.

Die folgende Ergebnisdarstellung richtet sich nach der Abfolge des Fragebogens und zwar ab dem 2. Teil des strukturierten Interviewfragebogens. Die Eingangsfrage kann dort nachvollzogen werden.

Auf die offene Frage 13 am Anfang des 2. Teils des Fragebogens, über welche Themen ein besonderes Interesse bestehe und diese deshalb auch besonderes Augenmerk in der Hauptuntersuchung finden sollten, nannten genau 50% der Betroffenen das Thema „Genetik“, genau 50% äußerten den Wunsch nach mehr Informationen über MHE. Die Angaben der Angehörigen sind fast identisch. Der Wunsch nach mehr Kontaktmöglichkeiten wurde von 40% der Angehörigen genannt, der Aspekt der psychosozialen

Belastung von 20%. Diese Themen spielten für die hier befragten Betroffenen keine Rolle.

Zum Themenbereich „Diagnosestellung MHE“ gaben 90,9% der betroffenen Teilnehmer an, dass sich die ersten Symptome ihrer Erkrankung in der Ausbildung von Exostosen äußerten, 18,2% hatten dabei auch Schmerzen und 45,5% litten unter Funktionseinschränkungen.

Den Zeitraum zwischen dem Auftreten der ersten Symptome und der Diagnosestellung MHE empfanden 27,3% als viel zu lang, nur 9,1% als angemessen und 36,4% empfanden ihn als recht kurz. 60% fühlten sich während dieser Zeit allein gelassen und 20% gut betreut. Auf die Frage (Nr. 20), wie zentral in Prozentangaben MHE im Leben erlebt wird, gaben die Angehörigen im Mittel 35,4 % (SD = 38,5, Range 5 bis 100) an. Die Betroffenen berichten etwas höhere Werte, im Mittel 40,1 % (SD = 40,9, Range 0 bis 100), wobei die Verteilung der Prozentangaben praktisch identisch ist. Es zeigt sich damit, dass die empfundene zentrale Rolle von MHE im Alltag individuell determiniert ist.

Mittels der Fragen Nr. 21ff wurde über 26 Einzelfragen die Einschätzung des aktuellen Wissenstandes über die Krankheit, der mögliche Wunsch nach bestimmten Informationen, gegenwärtige Probleme als Folge der Erkrankung, Krankheitsbewältigung (Coping) und der Umfang sozialer Unterstützung erfasst, die vierstufig („trifft voll und ganz zu“ = 4 bis „trifft überhaupt nicht zu“ = 1) skaliert waren. Für die Tabellendarstellung wurden die Kategorien „trifft voll und ganz zu“ sowie „trifft ein wenig zu“ zu Klasse „trifft zu“ zusammen genommen und analog die Kategorien „trifft eher nicht zu“ und „trifft überhaupt nicht zu“ zu der Klasse „trifft nicht zu“. Zudem finden sich Mittelwerte und Standardabweichungen der Skala. Die Ergebnisse wurden nach den Angaben der Angehörigen und Betroffenen aufgeteilt und sind Tabelle 1 zu entnehmen. Die jeweilige Fragenummer findet sich in Spalte 1.

Tab. 1: Angaben zum Wissenstand und Informationswunsch in %

Nr	Kurzbezeichnung	Angehörige (n=5)			Betroffene (n=6)		
		M / SD	trifft zu	trifft nicht zu	M / SD	trifft zu	trifft nicht zu
			in %	in %		in %	in %
	Alter, M / SD / Range	40,4 / 7,9 / 30-51			33,2 / 15 / 15-52		
	Geschlecht, weiblich	4 (80%)			4 (66,7%)		
21	ausreichendes Wissen	2,6 / 0,9	60	40	2,3 / 1,4	66,7	33,3
22a	Wissen über Ärzte	1,8 / 1,5	60	20	1,6 / 0,9	66,7	16,7
22b	Wissen über Internet	1,8 / 1,5	60	20	2,2 / 1,3	50	33,3
22c	Wissen über Bücher	3,3 / 0,9	20	60	3,2 / 1,3	16,7	66,7
23a	Interesse MHE	1,4 / 0,9	80	20	1,2 / 0,4	100	0
23b	Interesse Prognose	1,4 / 0,9	80	20	1,0 / 0,0	100	0
23c	Interesse OP-Verfahren	1,6 / 0,9	80	20	1,2 / 0,4	100	0
23d	Interesse Genetik	1,4 / 0,9	80	20	1,3 / 0,8	83,3	16,7
24a	Interesse psychosoziale Themen	1,6 / 0,9	80	20	1,3 / 0,5	100	0
24b	Interesse Anpassungsstörungen	1,4 / 0,5	100	0	2,2 / 1,3	50	33,3
24c	Interesse Hänseleien	1,4 / 0,5	100	0	1,5 / 0,8	83,3	16,7
24d	Reaktion Familie/Freunde/Klasse	1,0 / 0,0	100	0	1,0 / 0,0	100	0
25a	Schlafstörungen	3,0 / 1,4	40	60	3,4 / 1,3	16,7	66,7

Fortsetzung Tab. 1							
Nr	Kurzbezeichnung	Angehörige (n=5)			Betroffene (n=6)		
		M / SD	trifft zu	trifft nicht zu	M / SD	trifft zu	trifft nicht zu
			in %	in %		in %	in %
26b	Stigmatisierungserleben	3,2 / 1,3	20	80	3,3 / 1,2	16,7	83,3
26c	Anpassungsstörungen	3,6 / 0,5	0	100	2,8 / 1,5	33,3	66,7
26d	Abwesenheit von Schule/Sport	<i>nur Betroffene</i>			2,8 / 1,3	16,7	50
26e	Substanzabusus	4,0 / 0,0	0	100	3,8 / 0,4	0	83,3
27	Veränderung durch MHE	2,2 / 1,3	60	40	3,5 / 1,2	16,7	83,3
28	Entwicklung von Strategien	2,8 / 1,3	40	60	2,0 / 1,5	66,7	33,3
29	Unterstützung durch Familie	1,0 / 0,0	100	0	1,5 / 1,2	83,3	16,7
30	Unterstützung durch Freunde	1,0 / 0,0	100	0	1,5 / 0,5	100	0
31	Negative Reaktionen	3,5 / 0,6	0	80	2,7 / 1,2	50	50

2.1.4 Konsequenzen für die Hauptstudie

Die Erhebung zeigt insgesamt eine positive Einstellung der Teilnehmer gegenüber der Thematik und dem methodischen Vorgehen des Telefoninterviews. Dies ist erfreulich, zumal die Teilnahme an derartigen Studien, im Gegensatz z.B. zur amerikanischen Selbsthilfegruppe, für viele der Befragten Neuland ist. Nach Informationen der MHE-Coalition (2003) besteht in den Vereinigten Staaten bereits eine sehr enge Zusammenarbeit zwischen wissenschaftlicher Seite und Selbsthilfegruppe. Aktuelle Studien werden innerhalb der MHE-Coalition bekannt gemacht und direkt unterstützt. Diese Zusammenarbeit erweist sich als sehr erfolgreich, da Ergebnisse schnell publiziert werden können und sich so die Informationen über MHE mehren. Weitere Informationen hierzu finden sich im Internet unter www.mhecoalition.com.

Die in dieser Vorstudie überwiegende Teilnahme weiblicher Angehöriger (80%) lässt die Vermutung zu, dass diese der allgemeinen Versorgungssituation innerhalb der Haushalte entspricht. Für die Hauptstudie wäre dennoch auf ein ausgewogeneres Verhältnis von angehörigen Männern zu Frauen zu achten.

Nach den dargestellten Angaben der Teilnehmer verfügen diese über ein „mittleres“ Wissen über die Erkrankung MHE. Die Frage, ob die Probanden über ein ausreichendes Wissen verfügen, beantwortete niemand mit „trifft voll und ganz zu“. Festzustellen ist hier, dass dieses Wissen vorwiegend über Ärzte und das Internet, und nur zu einem sehr geringen Teil aus Büchern, bezogen wird. Hier stellt sich die Frage, inwieweit z.B. die Selbsthilfegruppe die Verbreitung vorhandener Literatur selbst in die Hand nehmen muss, beispielsweise durch das Verteilen bestimmter Broschüren wie dem MHE - Handbuch in Arztpraxen, Schulen, etc. .

Ein hohes Interesse an der Erkrankung selbst, der Prognose, den verschiedenen OP-Verfahren sowie an der Genetik, wird sowohl bei den betroffenen Probanden, als auch bei den Angehörigen deutlich. Auch kann ein etwa gleichgroßes Interesse gegenüber dem Bereich „psychosoziale Themen“ verzeichnet werden. Insofern kann dieser Bedarf durch die Hauptuntersuchung intensiver aufgegriffen und untersucht werden.

Ein ganz zentrales Thema scheint die Wahrnehmung der Umwelt (Familie, Freunde, Klasse) sowohl für die Betroffenen, als auch für die Angehörigen zu sein. Auch dieser Schwerpunkt soll in der Hauptstudie vertieft werden vor dem Hintergrund, ob eine unterschiedliche Wahrnehmung des Alltags mit MHE bei Betroffenen und Angehörigen besteht. Diese Vermutung wird durch die Frage „hat sich Ihr Leben durch MHE verändert“ gestützt. Die Angehörigen geben hier eine höhere Veränderung ihres Lebens an als die Erkrankten selbst.

Die Fragen zu möglichen gegenwärtigen somatischen wie auch psychischen Problemen als Folge der MHE-Erkrankung wurden überwiegend mit der Antwort „trifft eher nicht zu“ beantwortet. Bei den Angehörigen sticht das Thema „Ängste“ mit einem Mittel von 2,2 etwas heraus. Eine genauere Inspektion der Verteilung zeigt hier, dass zwei Angehörige „trifft voll und ganz zu“ angaben. Insofern muss bei der Darstellung der Mittelwerte stets bedacht werden, dass im Einzelfall, also für die individuelle Person, sehr wohl entsprechende Probleme bestehen können. Das gleiche gilt für das Thema „Anpassungsstörungen“ für die Betroffenen, dies liegt im Mittel bei 2,8, jedoch wählten zwei Personen auch die höchste Kategorie. Auf diese Themen wird insbesondere in der Dissertation „Gesundheitsbezogene Lebensqualität, Coping und Soziale Unterstützung bei Patienten mit Multiplen Hereditären Exostosen (MHE) und ihren Angehörigen“ (Albers, 2007) eingegangen. Ein weiteres zentrales Thema scheint die medizinische Versorgung

sowie die Betreuung MHE-Erkrankter durch medizinische und nicht-medizinische Leistungen zu sein. Den Zeitraum zwischen dem Auftreten der ersten Symptome und der Diagnosestellung MHE empfanden 27,3% als viel zu lang, nur 9,1% als angemessen. Mehr als die Hälfte (60%) fühlten sich während dieser Zeit allein gelassen. Die Frage, ob die Probanden über ein ausreichendes Wissen verfügen, beantwortete niemand mit „trifft voll und ganz zu“. Diese Thematik wird in der vorliegenden Untersuchung ausführlich behandelt.

2.2 Hauptstudie

Ziel dieser Untersuchung ist es, die derzeitige Situation der Versorgung von MHE-Betroffenen und deren Angehörigen unter Alltagsbedingungen zu evaluieren und zu beschreiben. Des Weiteren wird die Versorgungssituation aus Sicht der behandelnden Ärzte erfasst und diskutiert.

2.2.1 Design

Die für diese Studie erhobenen Daten entstammen einer explorativ-deskriptiven Querschnittstudie. Die Daten wurden im Zeitraum von Mai 2004 bis September 2004 erfasst. Zu Untersuchungszwecken wurden die Probanden in fünf Kategorien „Betroffene Erwachsene“, „Betroffene Kinder“, Eltern betroffener Kinder“, „Lebenspartner“ und „Experten“ aufgeteilt. Für jede dieser Kategorien wurde ein auf die Teilnehmer speziell zugeschnittener Fragebogen verwendet. Die Erhebung der Daten erfolgte telefonisch bzw. auf Wunsch einzelner Studienteilnehmer postalisch.

Das Studiendesign wurde im Jahr 2004 der Ethikkommission der Ärztekammer Hamburg vorgelegt und von dieser genehmigt (Anlage D).

2.2.2 Stichprobe

In der Durchführung der Studie galt es zunächst, möglichst viele MHE-Betroffene und deren Angehörige auf diese Untersuchung aufmerksam zu machen. Das Nutzen von verschiedenen Verteilern sowie die enge Zusammenarbeit mit diversen Experten, wie verschiedenen Ärzten der Uniklinik Hamburg, Düsseldorf und eines Krankenhauses in Paderborn, weiter die Zusammenarbeit mit der Bundesselbsthilfegruppe (SHG) „Multiple kartilaginäre Exostosen (Osteochondrome)“ ermöglichte die Kontaktaufnahme via eines informativen Anschreibens und eines Kontaktbogens, mit dem sich Interessierte bei den Untersuchern melden konnten.

Außerdem wurde die Untersuchung sowohl auf dem Symposium „Multiple Kartilaginäre Exostosen“ in der Universität Hamburg im Mai 2003 sowie bei dem jährlichen Bundestreffen der SHG 2003 vorgestellt. Auf diesem Weg wurde persönlich Kontakt zu potentiellen Studienteilnehmern aufgenommen. Zusätzlich fanden sich Informationen und ein Hinweis auf die Studie auf der Internetseite der SHG (<http://www.exostosen.de>). Hier hatten Betroffene und Angehörige auch die Möglichkeit, Kontakt zu den Doktoranden mittels dort hinterlegten Kontaktbögen aufzunehmen.

Die Teilnehmer der Studie wurden im Voraus durch die Untersucher in schriftlicher Form über den genauen Ablauf, die Freiwilligkeit der Teilnahme sowie über die anonyme Behandlung und Codierung Ihrer persönlichen Daten aufgeklärt (Anlage E). Diese Aufklärung und eine unterschriebene schriftliche Einverständniserklärung (Anlage F) stellten eine Voraussetzung für die Teilnahme an der Studie dar. Alle Teilnehmer hatten zu jeder Zeit die Möglichkeit, ohne Angabe von Gründen die weitere Teilnahme an der Studie abzulehnen.

Um eine größere Bereitschaft zur Teilnahme der behandelnden Ärzte an der Studie zu erzielen erfolgte der Kontakt zwischen den Ärzten und der Doktorandin ausschließlich via Fax (Anlage G). Auf diese Weise wurden 63 Fachärzte (Orthopäden, Chirurgen sowie Kinderärzte) über die Studie informiert und erhielten die Fragebögen. Bei der Konzipierung der Fragebögen wurde eine Bearbeitungszeit für die Ärzte von ca. 10 Min. veranschlagt.

Bei allen potenziellen Teilnehmern handelt es sich um Ärzte, die sich schon mit der Exostosenkrankheit befasst haben. Sie wurden im Rahmen der Recherche zu der vorgelegten Studie von Patienten genannt bzw. traten erstmals auf dem Symposium über MHE in Hamburg 2003 mit der Doktorandin in Kontakt. 15 (23,8%) der angeschriebenen Ärzte/Ärztinnen (das entspricht nicht ein Mal einem Viertel!) beantworteten die Fragebögen, die wiederum per Fax an die Doktorandin ausgefüllt zurückgingen.

Von der Grundgesamtheit der von den Untersuchern kontaktierten Personen (152) in dem Zeitraum Mai 2003 bis März 2004 füllten 95 Teilnehmer (63,2%) die Fragebogen aus.

Zu Untersuchungszwecken wurden die Probanden in fünf Kategorien aufgeteilt:

- Betroffene Erwachsene
- Eltern betroffener Kinder
- Betroffene Kinder
- Experten/behandelnde Ärzte
- Lebenspartner betroffener Erwachsener

Für jede dieser Kategorien wurde ein auf die Teilnehmer speziell zugeschnittener Fragebogen konzipiert. Die Auswertung der

Kategorie „Lebenspartner“ erfolgt in der Dissertation „Gesundheitsbezogene Lebensqualität, Coping und Soziale Unterstützung bei Patienten mit Multiplen Hereditären Exostosen (MHE) und ihren Angehörigen“ (Albers, 2007), da hier die Lebenspartner besonderes Augenmerk finden. Vorgespräche mit Studienteilnehmern zeigten, dass die Lebenspartner MHE-Betroffener keine relevanten Aussagen in Bezug zu deren Versorgung treffen konnten. So fiel die Teilnehmerzahl für diese Erhebung von 95 auf 85.

Alle Teilnehmer verfügen über ausreichend deutsche Sprachkenntnisse.

2.2.3 Messinstrumente

Der erste Teil der Fragebögen umfasst die Erhebung soziodemographischer Daten. Um eine standardisierte und projektübergreifende Vergleichbarkeit der Stichprobenmerkmale sicherzustellen orientieren sich die Fragen eng an Empfehlungen der Arbeitsgruppe „Routinedaten“ im Förderschwerpunkt Rehabilitationswissenschaften des Bundesministerium für Bildung und Forschung (BMBF) und der Deutschen Rentenversicherung (Deck, 1999). Der soziodemographische Datensatz („Patientenstammblatt“) umfasst alle empfohlenen Fragenbereiche. Dies gilt für jede in dieser Studie vorkommende soziodemographische Datenerhebung. Lediglich die Datenerhebung der befragten Ärzte und Kinder unterscheidet sich wesentlich, da sich hier aufgrund der vorausgesetzten beruflichen Tätigkeit bzw. des Alters viele Fragen erübrigen oder für die Erhebung irrelevant sind.

Der zweite Teil der Erhebung beinhaltet Fragen zur Gesundheitsversorgung MHE-erkrankter Kinder und Erwachsener.

Vorlage für diesen Fragebogen bildet der Fragebogen „disabkids-Fragen zur Versorgung“. Dieser Fragebogen entstand auf der Basis einer internationalen Erhebung „Development of a child health care questionnaire on satisfaction, utilization and needs (CHC-SUN): Results from a European pilot study“ zur Erstellung eines Fragebogens für Eltern chronisch kranker Kinder in Bezug auf deren Versorgungssituation. Die Zusammenarbeit zwischen Mitarbeitern des Instituts für Medizinische Psychologie der Universität Hamburg (Prof. Dr. Monika Bullinger, Dr. Silke Schmidt, Dr. Corinna Petersen) und Mitarbeitern aus sieben verschiedenen Ländern – Österreich, Frankreich, Deutschland, Griechenland, die Niederlande, Schweden und Großbritannien - ermöglichte die Erstellung dieses Fragebogens mit internationalem Standard.

Das Ziel der CHS-SUN-Studie war, ein Instrument vorzutesten, mit dem sich die Bedürfnisse und die Zufriedenheit medizinischer Versorgung am Beispiel von Kindern mit chronischen Erkrankungen (CHC-SUN = Childs Health Care questionnaire on satisfaction, utilization and needs) bestimmen lassen. Es wurden die psychometrischen Qualitäten und die Nutzbarkeit eines neu entwickelten Nutzungs- und Bedarfsinstruments für die medizinische Versorgung getestet, um die erforderlichen Kernfragen für die Bewertung pädiatrischer, medizinischer Versorgungssysteme aus übernationaler Perspektive zu ermitteln.

Für eine Analyse des pädiatrischen Gesundheitsdienstes liegt hiermit ein Instrument vor, welches aus Sicht der Eltern Aspekte von Behandlungsstrukturen, -abläufen und -ergebnissen messbar macht. Es zeigt sowohl gute psychometrische Eigenschaften als auch klinische Assoziationen mit den Krankheitsparametern. Das Instrument erweist sich als geeignet für die Bestimmung der medizinischen Versorgungsqualität aus familiärer Sicht. Die länderübergreifende Analyse ergibt darüber hinaus, dass sich mit diesem Instrument auch vergleichende Studien der

Gesundheitsdienste unterschiedlicher Gesundheitssysteme in Europa erstellen lassen (Schmidt et al., in Druck).

Inwieweit chronisch kranke Kinder in der Lage sind, von den Gesundheitsdiensten zu profitieren, ist bisher nur unzureichend untersucht. Zudem gibt es kaum Belege für die Effizienz von Therapien, was zum Teil in der Schwierigkeit begründet liegt, diesen Beleg aus kindlicher Perspektive zu erhalten. Es ist daher wichtig, die Sichtweise der Familie als Stellvertreter des Kindes mit einzubeziehen.

Ein weiteres Ziel bei der Einbeziehung der Familien in die Analyse ist, sie zur Mitarbeit bei der häuslichen Versorgung von Kindern mit chronischen Erkrankungen zu ermutigen (Schmidt et al., in Druck).

Im Einzelnen geht es in dem „disabkids“-Fragebogen um die Frage der Zufriedenheit der Eltern mit der medizinischen Versorgung Ihrer Kinder im Hinblick auf...

1. die **kinder-/hausärztliche Betreuung** (2 Items) bzw. **fachärztliche Betreuung** (4 Items) ihres Kindes.

Beispiel 1: „Haben Sie einen Kinder-/Hausarzt, den Sie regelmäßig besuchen?“

(Itemkodierung: 1=„ja“,2=„nein“)

Beispiel 2: „Sind Sie mit dem Arzt/Ärztin zufrieden?“

(Itemkodierung: 1=„nicht zufrieden“ bis 5=„äußerst zufrieden“)

2. die Versorgung der Kinder mit **Medikamenten** (4 Items) und die **Notfallbehandlung** (3 Items).

Beispiel 3: „Sind Sie mit den verordneten Medikamenten Ihres Kindes zufrieden?“

(Itemkodierung: 1=„nicht zufrieden“ bis 5=„äußerst zufrieden“)

Beispiel 4: „War es schwierig, in einem Notfall ärztliche Hilfe für Ihr Kind zu bekommen?“

(Itemkodierung: 1=“extrem schwierig“, 5=“gar nicht schwierig“)

Weiterhin werden Fragen bezüglich...

3. der durch die Krankheit verursachten **finanziellen Belastungen** (4 Items) für die Familien geklärt.

Beispiel 5: „Wie hoch ist die finanzielle Belastung durch die chronische Erkrankung Ihres Kindes?“

(Itemkodierung: 1=“extreme Belastung“, 5=“keine Belastung“)

Außerdem sind Aussagen bezüglich

4. **nicht-ärztlicher Leistungen** (15 Items)

Beispiel 6: „In welchem Umfang erhalten Sie folgende Leistungen (Krankengymnastik, Ergotherapie, Logopädie etc.)“

(Itemkodierung: 1=“ja“, 2=“teilweise“, 3=“nein brauchen wir nicht“, 4=“nein benötigen wir“)

5. sowie der **Qualität der Versorgung** Bestandteil dieses Abschnittes.

Die Items zur Beschreibung der **Qualität** werden im Rahmen der Auswertungsroutine (Mittelwertbildung) zu sechs Skalen zusammengefasst.

- 5.1 5 Items bilden die Skala **„Information zur Diagnose“**

Beispiel 7: „Waren Sie zufrieden mit der Zeitdauer, die für die Diagnosestellung benötigt wurde?“

- 5.2 3 Items bilden die Skala zur **Zusammenarbeit des medizinischen Personals**.

Beispiel 8: „Waren Sie zufrieden mit der Zusammenarbeit des medizinischen Personals untereinander?“

- 5.3 16 Items bilden 3 Skalen zur **Zufriedenheit der Eltern bezüglich der behandelnden Ärzte und Spezialisten**.

5.4 S. 5.3

5.5 S. 5.3

Beispiel 9: „Waren Sie zufrieden damit, wie die Ärzte Ihrem Kind zugehört haben?“

Beispiel 10: „Waren Sie zufrieden mit dem Fachwissen der Ärzte?“

Beispiel 11: „Waren Sie zufrieden mit der Zeit, die der Arzt für Sie und Ihr Kind hatte?“

- 5.6 2 Items bilden die Skala zur Zufriedenheit der Eltern bezüglich der **Unterstützung durch die Schule**.

Beispiel 12: „Waren Sie zufrieden damit, wie die Lehrer/innen auf die Erkrankung Ihres Kindes achten?“

Für alle Skalen gilt die Itemkodierung: 1=„nicht zufrieden“, 5=„äußerst zufrieden“.

Die letzte Frage bezieht sich auf die Zufriedenheit bezüglich der Gesundheitsversorgung der Kinder allgemein.

(Itemkodierung: 1=“nicht zufrieden“, 5=“äußerst zufrieden“)

Ein hoher Wert auf der Skala bedeutet eine große Zufriedenheit.

Bei der Befragung der Eltern MHE-erkrankter Kinder kam der „disabkids“-Fragebogen in der originalen Fassung zum Einsatz. Der Interviewleitfaden für die Befragung der erkrankten Kinder, der MHE-erkrankten Erwachsenen und der behandelnden Ärzte richtet sich im Wesentlichen auch nach dem Konzept des „disabkids“-Fragebogens. Die Fragen wurden entsprechend der Zielgruppe umformuliert und adaptiert (Anlagen H-K).

Der sich ähnelnde strukturelle Aufbau der Fragebögen ermöglicht später eine gezielte Gegenüberstellung der Aussagen der einzelnen Gruppen.

Der Interviewleitfaden zur Befragung der Kinder soll einen Einblick der Versorgungssituation aus Sicht der erkrankten Kinder ermöglichen (Anlage J).

Beispiel 13: „Mein Arzt hat immer ausreichend Zeit für mich.“

Beispiel 14: „Ich weiß genug über meine Exostosen, um mich an den Behandlungsentscheidungen zu beteiligen.“

Beispiel 15: „Meine Lehrer haben ein großes Interesse an meiner Erkrankung.“

(Itemkodierung: 1=“trifft gar nicht zu“, 4=“trifft voll und ganz zu“)

Bei der Befragung der Experten wurde ein Interviewleitfaden konzipiert, der eine Beschreibung der Qualität der Versorgung MHE-erkrankter Patienten aus Sicht der behandelnden Ärzte ermöglichen soll (Anlage K).

Beispiel 16: „Ich kann meine Patienten ausreichend über das Krankheitsbild MHE informieren.“

Beispiel 17: „Meine Patienten verfügen über ein ausreichendes Wissen über MHE.“

Beispiel 18: „Ich habe ausreichend Informationen über die Existenz der Selbsthilfegruppe.“

(Itemkodierung: 1=“trifft überhaupt nicht zu“, 4=“trifft voll und ganz zu“)

Beispiel 19: „Ich verfüge über ausreichend Ressourcen/Wissen, um meine Patienten befriedigend zu behandeln.“

(Itemkodierung: 1=“ja“, 2=“nein“)

Beispiel 20: „Wie schätzen Sie die Versorgungssituation von MHE-Erkrankten in Deutschland ein in %?“

(0%=“völlig unzureichend“, 100%=“ausgezeichnet“)

Tabelle 2 zeigt die Vorgabe der Instrumente in Bezug auf die einzelnen Kategorien.

Tabelle 2: Vorgabe der Instrumente in Bezug auf einzelne Kategorien

Gruppe	Betroffene Erwachsene	Eltern	Betroffene Kinder	Experten
Verfahren				
Soziodemographie	X	X	X	
DISABKIDS	X	X	X	
Interviewleitfaden				X

2.2.4 Durchführung

Die Erhebung der Daten erfolgte in der Zeit von Mai 2004 bis September 2004 nach individueller Terminabstimmung telefonisch in Interviewform, auf Wunsch einzelner Studienteilnehmer zum Teil auch postalisch. Kinder, die Schwierigkeiten zeigten, sich längere Zeit am Telefon zu konzentrieren, bzw. nicht lese- und schreibfähig waren, wurden mit dem gleichen Fragebogen durch die Eltern befragt. Die Befragung der behandelnden Ärzte erfolgte via Fax. Die Fragebögen wurden in der Abteilung für Medizinische Psychologie im Universitätskrankenhaus Eppendorf in Hamburg ausgewertet.

2.2.5 Auswertung

Die statistische Auswertung aller Daten aus den Interviews der Vorstudie und der Hauptstudie erfolgte mittels des Programmpakets SPSS (Statistical Package for the Social Science). Die Auswertung erfolgte vorwiegend deskriptiv nach Häufigkeiten, Mittelwerten und

Standardabweichungen. Die inferenzstatistischen Prüfungen der hier untersuchten Personengruppen und der Vergleichsgruppe chronisch kranker Kinder (Schmidt et al., in Druck) auf Mittelwertsunterschiede erfolgten in Abhängigkeit vom Skalenniveau mittels chi-Quadrat-Test, Mann-Whitney U-Test oder t-Test.

Zudem wird bei dem Vergleich der Daten mit Referenzwerten aus der Vergleichsgruppe die standardisierte Effektstärke (SES) ermittelt ($[M_k - M_n] / SD_n$). Werte bis 0,20 werden als kleine Effekte interpretiert, Werte bis 0,40 werden als mittlere Effekte bewertet, und Werte ab 0,80 als große Effekte. P-Werte unter ,05 werden als signifikant betrachtet.

3 Ergebnisse der Hauptstudie

Um eine bessere Übersicht zu gewährleisten, erfolgt die Ergebnisdarstellung in den oben genannten Kategorien „Betroffene Erwachsene“, „Betroffene Kinder“, „Eltern“ und „Experten“.

3.1 Beschreibung der Gesamtstichprobe

Es nahmen 85 Personen im Alter zwischen 5 und 65 Jahren an der Erhebung teil.

20 (23,5%) befinden sich in der Kategorie „betroffene Erwachsene“, 24 (28,2%) der Probanden befinden sich in der Kategorie „Eltern“, 26 (30,6%) in der Kategorie „Kinder“ und 15 (17,6%) sind der Kategorie Experten zugeordnet.

Tab. 3: Beschreibung der Gesamtstichprobe (N=85)

	Betroffene Erwachsene	Eltern	Kinder	Experten
n	20	24	26	15
Alter M	39,05	41,67	10,92	49,60
Min Max	20 65	31 55	5 17	36 64
SD	12,77	5,83	3,17	7,17
Sex w	45,0%	83,3%	38,5%	6,7%

3.2 Ergebnisse der Kategorie „betroffene Erwachsene“

3.2.1 Stichprobe, Kategorie „betroffene Erwachsene“

20 (23,5%) der Studienteilnehmer (N=85) im Alter von 20 bis 65 Jahren werden der Kategorie „Betroffene Erwachsene“ zugeordnet. 45,0% sind weiblich.

3.2.2 Soziodemographie, Kategorie „betroffene Erwachsene“

Der erste Teil des Fragebogens für betroffene Erwachsene beinhaltet die Erhebung soziodemographischer Daten. Diese Merkmale zeigt Tabelle 4.

Tabelle 4: Soziodemographische Merkmale der Kategorie „Betroffene Erwachsene“
(n=20)

Soziodemographische Merkmale	n=20	Häufigkeit	Gültige Prozenzte
Alter	20-35 J.	7	35,0
	36-50 J.	10	50,0
	51-65 J.	3	15,0
Geschlecht	Weiblich	9	45,0
	Männlich	11	55,0
Staatsangehörigkeit	Deutsch	20	100,0
Familienstand	Verheiratet	12	60,0
	Zusammenlebend	1	5,0
	Getrennt	2	10,0
	Ledig	5	25,0
Anzahl der Kinder im Haushalt	Keine Kinder	6	30,0
	1 Kind	4	20,0
	2 Kinder	7	35,0
	3 Kinder	3	15,0
Personen im Haushalt	1 Person	3	15,0
	2 Personen	2	10,0
	3 Personen	5	25,0
	4 Personen	8	40,0
	5 Personen	2	10,0
Schulabschluss	Kein Abschluss	1	5,0
	Sonderschule	1	5,0
	Hauptschule	3	15,0
	Realschule	5	25,0
	Fachhochschule	2	10,0
	Abitur	8	40,0
Ausbildung	Keine Ausbildung	6	30,0
	Beruflich/betrieblich	6	30,0
	Handelsschule	2	10,0
	Fachhochschule	2	10,0
	Hochschule	4	20,0

Fortsetzung Tab. 4

Soziodemographische Merkmale	n=20	Häufigkeit	Gültige Prozente
Beruf	Ausbildung	1	5,0
	Erwerbstätig	11	55,0
	Arbeitslos	3	15,0
	Frühberentet	2	10,0
	Berentet	2	10,0
	Sonstiges	1	5,0
Position (n=18)	Angelernter Arbeiter	2	11,1
	Facharbeiter	2	11,1
	Angestellter	12	66,7
	Selbstständig	1	5,6
	Sonstiges	1	5,6
Monatl. Nettoeinkommen (n=19)	Weniger als 1500 €	10	54,6
	1500-3000 €	7	36,8
	über 3000 €	2	10,5

Eine detaillierte Verteilung des Alters der Studienteilnehmer zeigt Abbildung 3.

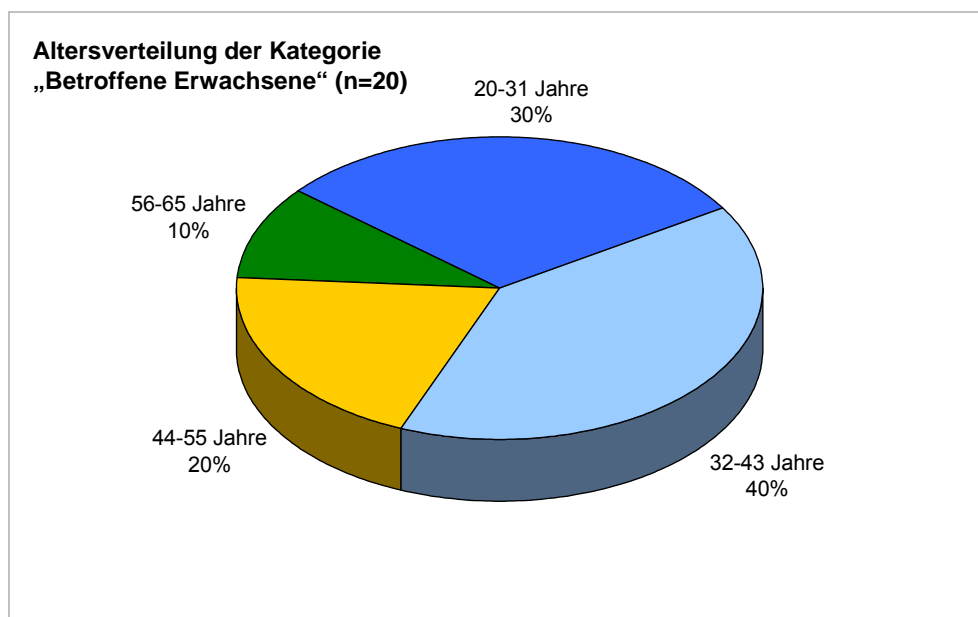


Abb. 3: Altersverteilung der Kategorie „Betroffene Erwachsene“ (n=20)

3.2.3 Fragen zu medizinischen Aspekten, Kategorie „betroffene Erwachsene“

In der folgenden Abbildung 4 erfolgt die Darstellung der Anzahl der Exostosen bei den „betroffenen Erwachsenen“.

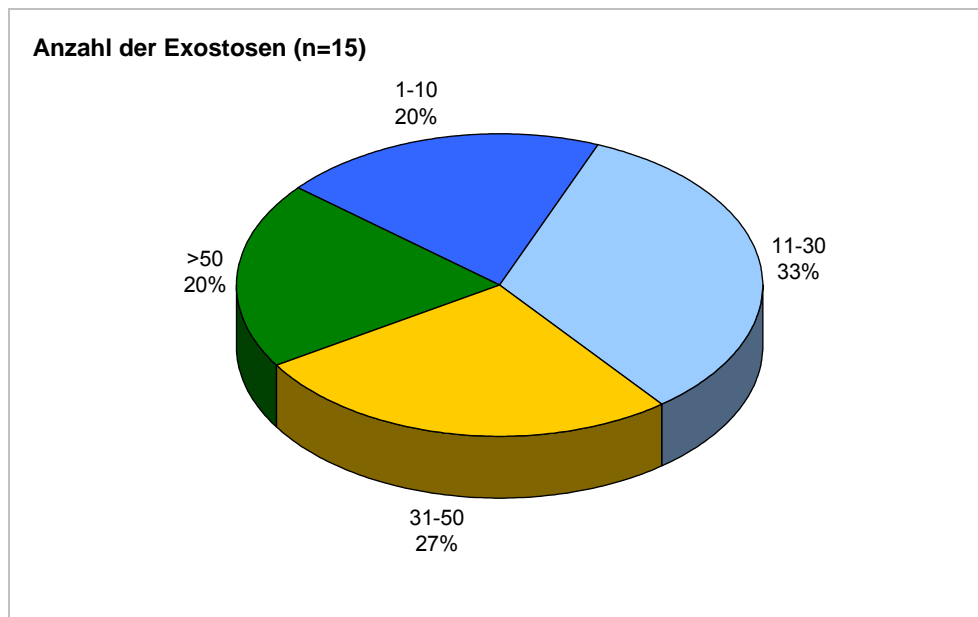


Abb. 4: Anzahl der Exostosen „Betroffene Erwachsene“

Die Darstellung der Lokalisationen der Exostosen in den verschiedenen Körperregionen Thorax, untere Extremität und obere Extremität erfolgt in Abbildung 5.

Es zeigt sich ein gehäuftes Auftreten der Exostosen im Bereich der oberen Extremität, vor der unteren Extremität und der Lokalisation im Bereich des Brustkorbes.

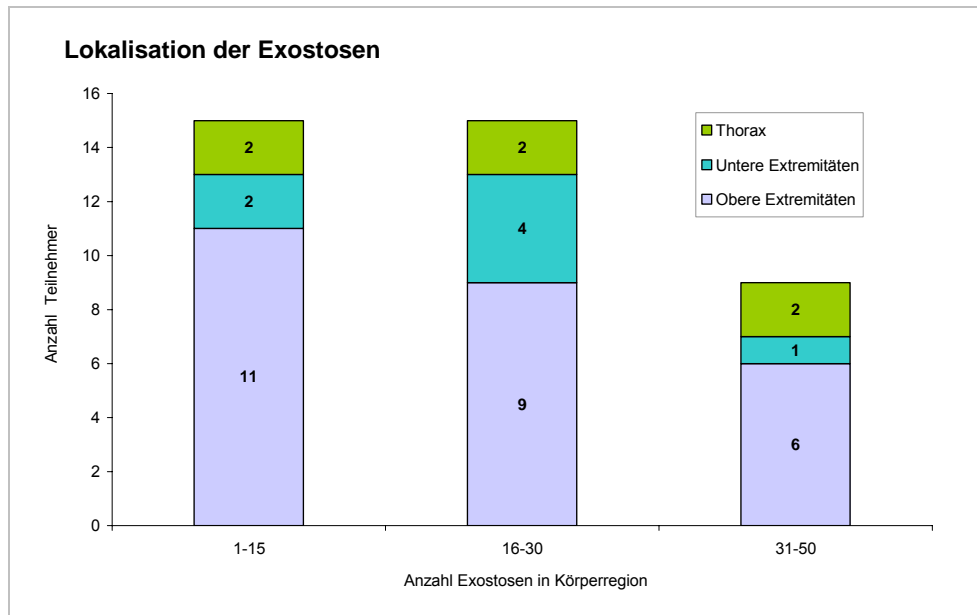


Abb. 5: Lokalisation der Exostosen „Betroffene Erwachsene“

Im Durchschnitt bemerkten die Studienteilnehmer (n=18) die ersten Symptome mit 4,2 Jahren (M=4,22; SD=4,05; Min=0; Max=15).

Bei 90,0% der Befragten Betroffenen (n=20) äußerten sich die ersten Symptome in Form von Exostosen. Bei 35,0% wurden diese von Schmerzen und bei über der Hälfte (55,0%) von Funktionseinschränkungen begleitet.

Im Durchschnitt vergingen zwischen den ersten Symptomen und der Diagnosestellung 5,5 Jahre (n=13; M=5,52; SD=13,51; Min=0; Max=50).

Diesen Zeitraum empfanden 15,4% der Studienteilnehmer (n=13) als recht kurz, 46,2% als angemessen und 38,5% als viel zu lang.

Über die Hälfte (57,1%) fühlten sich während dieser Zeit allein gelassen.

In der folgenden Frage wurden die Studienteilnehmer (n=19) gebeten anzugeben, wie zentral MHE in ihrem Leben in Prozent ist. Im Durchschnitt nimmt MHE 45,3% (M=45,32; SD=30,90; Min=1; Max=100) das Leben der Betroffenen ein.

Die bisher erfolgte professionelle Behandlung, zeigt die Abb. 6.

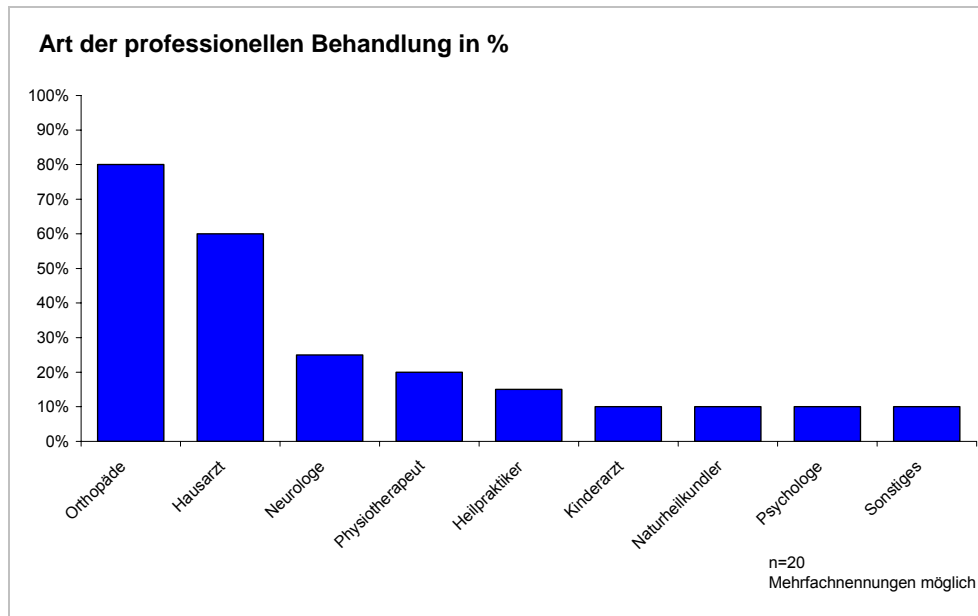


Abb. 6: Art der professionellen Behandlung in % „Betroffene Erwachsene“

3.2.4 Fragen zur Versorgung, Kategorie „betroffene Erwachsene“

Fragen 1 und 2: hausärztliche Betreuung

15 (75,0%) der Befragten (n=20) haben einen Kinder- bzw. einen Hausarzt/ärztin, der/die sich regelmäßig um die gesundheitlichen Probleme ihres Kindes kümmert. Die Zufriedenheit mit diesem Arzt/ dieser Ärztin wird auf einer Skala von 1-5 beurteilt; 1=“nicht zufrieden“, 5=“äußerst zufrieden“. Hierbei ergibt sich $M=3,56$; $SD=0,89$.

Fragen 3 bis 6: Behandlung durch den Facharzt oder die Fachärztin

11 (55,0%) der Befragten (n=19) gehen zu einem für die Erkrankung ausgebildeten Spezialisten. 35,0% besuchten diesen in den vergangenen 12 Monaten.

Ob es schwierig war, fachärztliche Hilfe zu erhalten, wurde von den Studienteilnehmern auf einer Skala von 1 bis 5 beurteilt; 1="extrem schwierig"; 5="gar nicht schwierig". Hierbei ergibt sich $M=1,94$; $SD=1,26$.

Bei der Zufriedenheit mit der fachärztlichen Behandlung ist $M=2,88$ und $SD=1,31$; dabei gilt 1="nicht zufrieden"; 5="äußerst zufrieden".

Fragen 7 bis 10: Medikamentöse Versorgung

11 (55,0%) der Befragten ($n=20$) verneinten die Frage, ob sie in den letzten 12 Monaten ärztlich verschriebene Medikamente einnahmen. Von den verbleibenden 9 Teilnehmern fand es niemand schwierig, Verordnungen für diese Medikamente zu erhalten. Die Zufriedenheit bezüglich der verschriebenen Medikamente wird mit allen Antwortmöglichkeiten nahezu gleichmäßig verteilt beantwortet.

80,0% der Befragten verneinten außerdem die Frage, ob sie in den letzten 12 Monaten Medikamente einnahmen, die nicht vom Arzt verordnet waren.

Fragen 11 bis 13: Fragen zur Notfallbehandlung

2 (10,0%) der Befragten ($n=20$) nahmen in den vergangenen 12 Monaten Notfallbehandlungen für sich in Anspruch.

Niemand fand es schwierig, in einem Notfall ärztliche Behandlung zu bekommen und alle waren mit der Behandlung zufrieden oder äußerst zufrieden.

Fragen 14-17: Finanzielle Belastung

16 (80,0%) der Befragten ($n=20$) müssen gelegentlich für ihre Gesundheitsversorgung etwas bezahlen. Allerdings beurteilte niemand der Teilnehmer diese Belastung als extrem hoch oder fand

es extrem schwierig, finanzielle Unterstützung zu erhalten. In den meisten Fällen wird die fachärztliche Behandlung direkt durch die Krankenkassen übernommen (80,0%) oder zu einem späteren Zeitpunkt zurückerstattet (10,0%).

Da zur Gesundheitsversorgung neben den ärztlichen Leistungen auch die nicht-ärztlichen Leistungen eine große Rolle spielen, werden der Bedarf und die Inanspruchnahme dieser im folgenden Abschnitt (Frage 18) beschrieben. Tabelle 5 zeigt die Darstellung der Häufigkeiten der Studienteilnehmer in Bezug auf Inanspruchnahme und Bedarf verschiedener nicht-ärztlicher Leistungen.

Tabelle 5: Bedarf und Inanspruchnahme verschiedener nicht-ärztlicher Leistungen, Kategorie „betroffene Erwachsene“ (n=20)

„Wir nehmen/nahmen folgende nicht-ärztliche Leistungen in Anspruch“:

Nicht-ärztliche Leistungen	Ja,	ja, teilweise	nein, brauchen wir nicht	nein, würden wir aber benötigen
	Häufigkeiten			
Krankengymnastik (n=18)	7	4	5	2
Ergotherapie (n=18)	1	1	15	1
Logopädie/Sprachtherapie (n=19)	2	0	17	0
Beratung durch Sozialdienst (n=19)	2	3	14	0
Psychologische Beratung/ Psychotherapie (n=19)	4	0	15	0
Häusliche Krankenpflege (n=19)	1	0	18	0

Fortsetzung Tab. 5

Gesundheitsdienstleistungen in der Schule, z.B. Schulkrankenschwester	1	2	14	1
Schulung (über die chronische Erkrankung)	1	2	10	6
Rehabilitationsmaßnahmen (n=19)	5	1	10	3
Kurzzeit-Entlastungspflege (n=18)	0	2	15	1
Selbsthilfegruppen (n=19)	7	4	7	1
Ausführliche Telefonberatung durch medizinisches	0	2	14	3
Ausstattung mit medizinischen Geräten (z.B. Blutzuckertest-,	1	2	14	1
Ausstattung mit Hilfsmitteln (z.B. Gehhilfen, Schreibhilfen, Schienen, Korsett;	7	1	10	1
Hilfe bei der Koordination verschiedener Gesundheitsdienste (case management)	0	4	14	1

Fett markierte Häufigkeiten werden im Folgenden diskutiert.

Im Folgenden Abschnitt des Fragebogens, Fragen 19 bis 43, soll die Qualität und die Zufriedenheit der Patienten in Bezug auf ihre Gesundheitsversorgung beschrieben werden. Die Beschreibung der Qualität wird im Rahmen der Auswertungsroutine (Mittelwertsbildung) zu fünf Skalen zusammengefasst. Die zuvor beschriebene 6. Skala zur Unterstützung durch die Schule entfällt in

dieser Kategorie. Die Ergebnisse zur Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung zeigt Tabelle 6.

Tab. 6: Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung Kategorie „betroffene Erwachsene“

	Info zur Diagnose (Frage 19-23)	Zusammenarbeit Personal (Frage 24-26)	Umgang der Ärzte (Frage 27-31)	Zufriedenheit Sprechstunde (Frage 32-35)	Zufriedenheit allgemein (Frage 36-42)
n	18	20	19	18	19
M	1,91	2,67	2,64	2,71	3,02
SD	1,13	1,21	0,88	0,91	0,96
Min	1	1	1	2	1
Max	5	5	4	5	5

Itemkodierung: 1=“nicht zufrieden“, 5=“äußerst zufrieden“. Ein hoher Wert auf der Skala bedeutet eine große Zufriedenheit.

Die letzte Frage, Frage 43, bezieht sich auf die Zufriedenheit der Patienten bezüglich ihrer Gesundheitsversorgung im Allgemeinen. Auch hier ist die Itemkodierung: 1=“nicht zu zufrieden“, 5=“äußerst zufrieden“. 20 Studienteilnehmer beantworteten diese Frage (n=20). Hier zeigen sich ein Mittelwert von M=2,90; SD=0,85; Min=1; Max=4. Niemand beantwortete die Frage mit „äußerst zufrieden“.

3.2.5 Zusammenfassung der Ergebnisse, Kategorie „betroffene Erwachsene“

Es wurden im Rahmen dieser Studie 20 „betroffene Erwachsene“ zu ihrer Erkrankung sowie ihrer Versorgungssituation befragt. Die Ausprägung der Exostosen innerhalb dieser Kategorie variiert stark. 1-bis 10 Exostosen haben 20%, 11-30 Exostosen zeigen 33% der Befragten, 31-50 37% und mehr als 50 Exostosen 20% der Erwachsenen. **Das bedeutet, 57% der Befragten, also mehr als die Hälfte, haben über 30 Exostosen.** Im Durchschnitt bemerkten

die Studienteilnehmer (n=18) die ersten Symptome mit 4,2 Jahren (M=4,22; SD=4,05; Min=0; Max=15).

Bei 90% der Befragten Betroffenen (n=20) äußerten sich die ersten Symptome in Form von Exostosen. Bei 35% wurden diese von Schmerzen und bei über der Hälfte (55%) von Funktionseinschränkungen begleitet.

Im Durchschnitt vergingen zwischen den ersten Symptomen und der Diagnosestellung 5,5 Jahre (n=13; M=5,52; SD=13,51; Min=0; Max=50).

Diesen Zeitraum empfanden 15,4% der Studienteilnehmer (n=13) als recht kurz, 46,2% als angemessen und **38,5% als viel zu lang**.

Über die Hälfte (57,1%) fühlten sich während dieser Zeit allein gelassen.

Die Studienteilnehmer wurden (n=19) gebeten anzugeben, wie zentral MHE in ihrem Leben in Prozent ist. Im Durchschnitt nimmt MHE **45,3%** (M=45,32; SD=30,90; Min=1; Max=100) das Leben der Betroffenen ein.

Hinsichtlich der Beurteilung der Versorgungssituation zeigt sich, dass 15 (75,0%) der Befragten (n=20) einen Hausarzt/ärztin haben, der/die sich regelmäßig um ihre gesundheitlichen Probleme kümmert. Die Zufriedenheit mit diesem Arzt/ dieser Ärztin wird auf einer Skala von 1-5 beurteilt; 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Hierbei ergibt sich M=3,56; SD=0,89. 11 (55,0%) der Befragten (n=20) gehen zu einem speziell für die Erkrankung ausgebildeten Spezialisten. 35,0% besuchten diesen in den vergangenen 12 Monaten.

Bei der Zufriedenheit mit der fachärztlichen Behandlung ist M=2,88 und SD=1,31; dabei gilt 1="nicht zufrieden"; 5="äußerst zufrieden".

11 (55,0%) der Befragten (n=20) verneinten die Frage, ob sie in den letzten 12 Monaten ärztlich verschriebene Medikamente einnahmen.

2 (10,0%) der Befragten (n=20) nahmen in den vergangenen 12 Monaten Notfallbehandlungen für sich in Anspruch.

Niemand fand es schwierig, in einem Notfall ärztliche Behandlung zu bekommen und alle waren mit der Behandlung zufrieden oder äußerst zufrieden.

16 (80,0%) der Befragten (n=20) müssen gelegentlich für ihre Gesundheitsversorgung etwas bezahlen. Allerdings beurteilt keiner der Teilnehmer diese Belastung als extrem hoch oder fand es extrem schwierig, finanzielle Unterstützung zu erhalten.

Bei der Inanspruchnahme nicht-ärztlicher Leistungen zeigt sich, dass hier die Teilnahme an der **Selbsthilfegruppe, Reha-Maßnahmen, Versorgung mit Hilfsmitteln sowie die krankengymnastische Versorgung** im Vordergrund stehen. Des Weiteren zeigt sich ein **hoher Bedarf an einer Schulung über MHE**, der jedoch nicht gedeckt ist.

Im Folgenden Abschnitt des Fragebogens, Fragen 19 bis 43, wurden die Qualität und die Zufriedenheit der Patienten in Bezug auf ihre Gesundheitsversorgung beschrieben. Itemkodierung: 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Ein hoher Wert auf der Skala bedeutet eine große Zufriedenheit. **Hinsichtlich der erhaltenen Informationen über die Erkrankung MHE während der Diagnosestellung zeigt sich ein Mittelwert $M=1,91$ sowie eine Standardabweichung $SD=1,13$.**

Die letzte Frage, Frage 43, bezieht sich auf die Zufriedenheit der Patienten bezüglich ihrer Gesundheitsversorgung im Allgemeinen. Auch hier ist die Itemkodierung: 1="nicht zu zufrieden", 5="äußerst zufrieden". 20 Studienteilnehmer beantworteten diese Frage (n=20). Hier zeigen sich $M=2,90$; $SD=0,85$; $Min=1$; $Max=4$. **Keiner der Studienteilnehmer ist „äußerst zufrieden“ mit seiner Gesundheitsversorgung.**

3.3 Ergebnisse der Kategorie „Eltern betroffener Kinder“

3.3.1 Stichprobe, Kategorie „Eltern betroffener Kinder“

24 (28,2%) der Studienteilnehmer (N=85) im Alter von 31 bis 55 Jahren gehören der Kategorie „Eltern“ an. 83,3% sind weiblich. Die Interviews erfolgten im Zeitraum zwischen März 2004 und Juni 2004.

3.3.2 Soziodemographie, Kategorie „Eltern betroffener Kinder“

Der erste Teil des Fragebogens für Eltern MHE-erkrankter Kinder beinhaltet die Erhebung soziodemographischer Daten. Diese Merkmale zeigt Tabelle 7.

Tab. 7: Soziodemographische Merkmale der Kategorie „Eltern“ (n=24)

Soziodemographische Merkmale	n=24	Häufigkeit	Gültige Prozenste
Alter	31-40 J.	12	50,0
	41-50 J.	10	41,6
	51-60 J.	2	8,4
Geschlecht	Weiblich	20	83,3
	Männlich	4	16,7
Staatsangehörigkeit	Deutsch	23	95,8
	Sonstige	1	4,2
Familienstand	Verheiratet	21	87,5
	Zusammenlebend	1	4,2
	Getrennt	1	4,2
	Ledig	1	4,2

Fortsetzung Tab. 7

Soziodemographische Merkmale	n=24	Häufigkeit	Gültige Prozenste
Anzahl der Kinder im Haushalt	1 Kind	4	16,7
	2 Kinder	12	50,0
	3 Kinder	6	25,0
	4 Kinder	2	8,3
Personen im Haushalt	3 Personen	5	20,8
	4 Personen	11	45,8
	5 Personen	5	20,8
	6 Personen	3	12,5
Schulabschluss	Hauptschule	7	29,2
	Realschule	4	16,7
	Fachhochschule	4	16,7
	Abitur	9	37,5
Ausbildung	Keine Ausbildung	4	16,7
	Beruflich/betrieblich	11	45,8
	Handelsschule	1	4,2
	Berufsschule	1	4,2
	Fachhochschule	1	4,2
	Hochschule	6	25,0
Beruf	Ausbildung	1	4,2
	Erwerbstätig	12	50,0
	Arbeitslos	3	12,5
	Berentet	1	4,2
	Hausfrau/-mann	6	25,0
	Sonstiges	1	4,2
Position (n=18)	Angelernter Arbeiter	3	12,5
	Facharbeiter	1	4,2
	Angestellter	19	79,2
	Sonstiges	1	4,2
Monatl. Nettoeinkommen (n=19)	Weniger als 1500 €	8	33,3
	1500-3000 €	11	45,8
	über 3000 €	4	16,7

Eine detaillierte Verteilung des Alters der befragten Eltern zeigt Abb.7

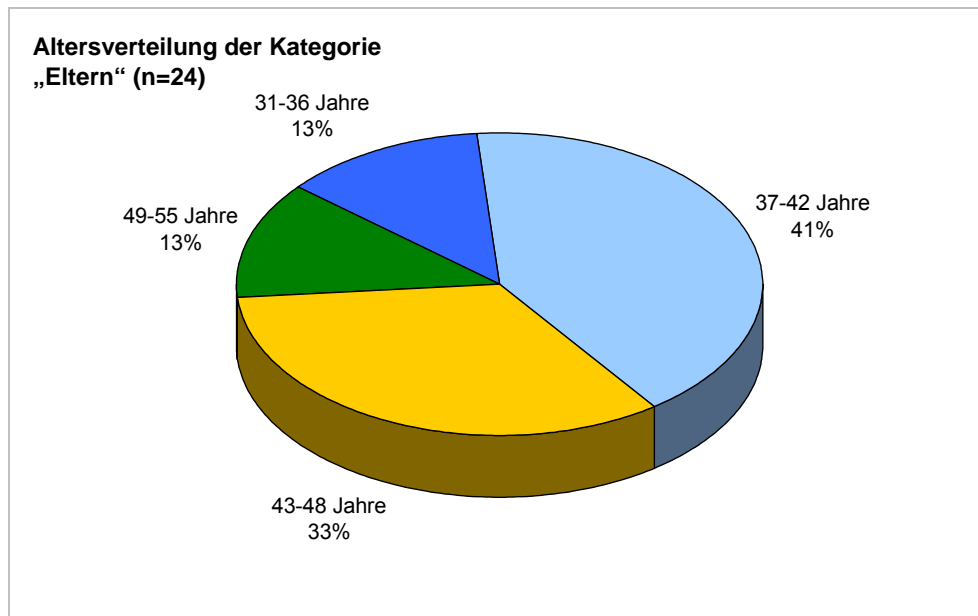


Abb7: Altersverteilung der Kategorie „Eltern“ (n=24)

3.3.3 Fragen zu medizinischen Aspekten, Kategorie „Eltern betroffener Kinder“

In Abbildung 8 erfolgt die Darstellung der Anzahl der Exostosen der Kinder.

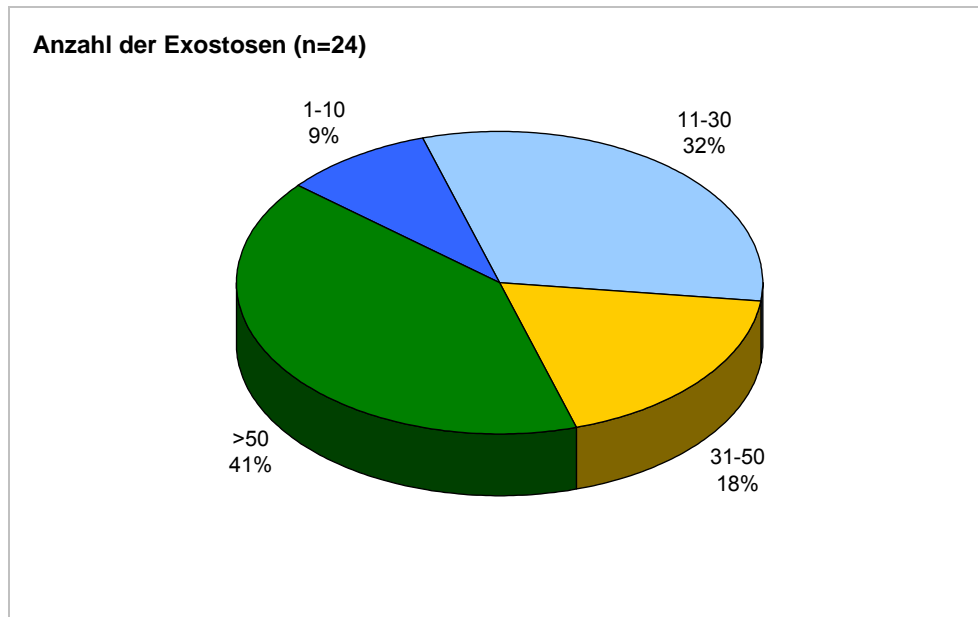


Abb.8: Anzahl der Exostosen der Kinder

Die Darstellung der Lokalisationen der Exostosen der betroffenen Kinder nach Aussage der Eltern erfolgt in Abbildung 9.

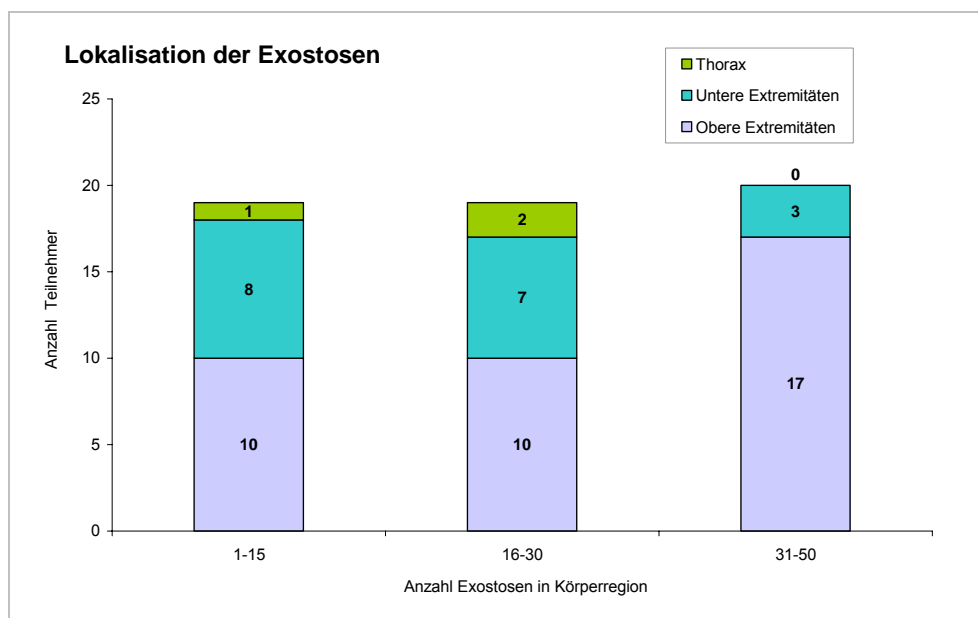


Abb.9: Lokalisationen der Exostosen der Kinder

3.3.4 Fragen zur Versorgung, Kategorie „Eltern betroffener Kinder“

Fragen 1 und 2: kinderärztliche oder hausärztliche Betreuung

17 (70,8%) der Befragten (n=24) haben einen Kinder- bzw. einen Hausarzt/ärztin, der/die sich regelmäßig um die gesundheitlichen Probleme ihres Kindes kümmert. Die Zufriedenheit mit diesem Arzt/ dieser Ärztin wird auf einer Skala von 1-5 beurteilt; 1=“nicht zufrieden“, 5=“äußerst zufrieden“. Hierbei ergibt sich $M=3,64$; $SD=0,70$.

Fragen 3 bis 6: Behandlung durch den Facharzt oder die Fachärztin

21 (87,5%) der Befragten (n=24) gehen mit ihrem Kind zu einem speziell für die Erkrankung ausgebildeten Spezialisten. 83,3% besuchten diesen in den vergangenen 12 Monaten.

Ob es schwierig war, fachärztliche Hilfe zu erhalten, wurde von den Studienteilnehmern auf einer Skala von 1 bis 5 beurteilt; 1=“extrem schwierig“; 5=“gar nicht schwierig“. Hierbei ergibt sich $M=2,26$ und $SD=1,45$.

Bei der Zufriedenheit mit der fachärztlichen Behandlung ist $M=3,09$ und $SD=1,16$; dabei gilt 1=“nicht zufrieden“; 5=“äußerst zufrieden“.

Fragen 7 bis 10: Medikamentöse Versorgung

18 (75,0%) der Befragten (n=24) verneinten die Frage, ob ihr Kind in den letzten 12 Monaten ärztlich verschriebene Medikamente einnahm. Von den verbleibenden 5 Teilnehmern fand es niemand schwierig, Verordnungen für diese Medikamente zu erhalten. Außerdem waren alle zufrieden oder sehr zufrieden mit den verordneten Medikamenten.

75,0% der Befragten verneinten außerdem die Frage, ob ihr Kind in den letzten 12 Monaten Medikamente einnahm, die nicht vom Arzt verordnet waren.

Fragen 11 bis 13: Fragen zur Notfallbehandlung

7 (29,2%) der Befragten (n=24) nahmen in den vergangenen 12 Monaten Notfallbehandlungen für ihr Kind in Anspruch.

Von diesen 7 fanden es 4 Teilnehmer nicht schwierig, in einem Notfall ärztliche Behandlung zu bekommen und waren mit der Behandlung zufrieden oder äußerst zufrieden.

Fragen 14-17: Finanzielle Belastung

10 (41,7%) der befragten Eltern (n=23) müssen gelegentlich für die Gesundheitsversorgung ihres Kindes etwas bezahlen. Allerdings beurteilen lediglich zwei der Teilnehmer diese Belastung als extrem hoch und fanden es auch extrem schwierig, finanzielle Unterstützung zu erhalten. In den meisten Fällen wird die fachärztliche Behandlung direkt durch die Krankenkassen übernommen (66,7%) oder zu einem späteren Zeitpunkt zurückerstattet (33,3%).

Der Bedarf und die Inanspruchnahme nicht-ärztlicher Leistungen werden im folgenden Abschnitt (Frage 18) beschrieben. Eine detaillierte Darstellung zeigt Tabelle 8

Tabelle 8: Bedarf und Inanspruchnahme verschiedener nicht-ärztlicher Leistungen, Kategorie „Eltern“ (n=24)

„Wir nehmen/nahmen folgende nicht-ärztliche Leistungen in Anspruch“:

Nicht-ärztliche Leistungen	Ja,	ja, teilweise	nein, brauchen wir nicht	nein, würden wir aber benötigen
	Häufigkeiten			
Krankengymnastik (n=23)	14	2	4	3
Ergotherapie (n=21)	1	1	14	5
Logopädie/Sprachtherapie (n=20)	3	1	15	1
Beratung durch Sozialdienst (n=21)	0	1	20	0
Psychologische Beratung/ Psychotherapie (n=22)	3	1	15	3
Häusliche Krankenpflege (n=22)	0	0	22	0
Gesundheitsdienstleistungen in der Schule, z.B. Schulkrankenschwester	0	0	20	1
Schulung (über die chronische Erkrankung)	0	0	11	10
Rehabilitationsmaßnahmen (n=22)	1	3	16	2
Kurzzeit-Entlastungspflege (n=22)	0	2	18	2
Selbsthilfegruppen (n=23)	14	4	2	3
Ausführliche Telefonberatung	1	1	15	6
Ausstattung mit medizinischen Geräten (z.B. Blutzuckertest-, Inhalationsgerät) (n=22)	3	0	19	0

Fortsetzung Tab. 8

Nicht-ärztliche Leistungen	Ja,	ja, teilweise	nein, brauchen wir nicht	nein, würden wir aber benötigen
Ausstattung mit Hilfsmitteln (z.B. Gehhilfen, Schreibhilfen,	7	1	15	0
Hilfe bei der Koordination verschiedener Gesundheitsdienste (case management)	0	0	18	4

Im Folgenden Abschnitt des Fragebogens, Fragen 19 bis 45, soll die Qualität und die Zufriedenheit der Eltern in Bezug auf die Gesundheitsversorgung ihres Kindes beschrieben werden. Die Beschreibung der Qualität wird im Rahmen der Auswertungsroutine (Mittelwertsbildung) zu sechs Skalen zusammengefasst. Die Ergebnisse zur Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung zeigt Tabelle 9.

Tab. 9: Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung

	Info zur Diagnose Frage 19-23	Zusammenarbeit Personal Frage 24-26	Umgang der Ärzte Frage 27-31	Zufriedenheit Sprechstunde Frage 32-35	Zufriedenheit allgemein Frage 36-42	Unterstützung Schule Frage 43, 44
N	23	22	23	23	23	21
M	2,02	2,80	2,64	2,95	3,19	2,45
SD	,85	1,10	,76	,83	1,01	1,18
Min	1	1	1	1	1	1
Max	1	5	4	5	5	5

Itemkodierung: 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Ein hoher Wert auf der Skala bedeutet eine große Zufriedenheit.

Die letzte Frage, Frage 45, bezieht sich auf die Zufriedenheit der Eltern bezüglich der Gesundheitsversorgung ihrer Kinder im Allgemeinen. Auch hier ist die Itemkodierung: 1="nicht zu frieden", 5="äußerst zufrieden". 23 Studienteilnehmer beantworteten diese Frage (n=23). Hier zeigen sich ein Mittelwert von $M=2,96$; $SD=0,98$; $Min=1$; $Max=4$.

3.3.5 Zusammenfassung der Ergebnisse, Kategorie „Eltern betroffener Kinder“

Im Durchschnitt bemerkten die Studienteilnehmer (n=24) die ersten Symptome bei ihren Kindern mit 1,9 Jahren ($M=1,88$; $SD=1,70$; $Min=0$; $Max=7$). Im Durchschnitt vergingen zwischen den ersten Symptomen, in den meisten Fällen Exostosen, teilweise begleitet durch Funktionseinschränkungen, und der Diagnosestellung ein knappes Jahr (n=21; $M=0,96$; $SD=1,36$; $Min=0$; $Max=5$). **Über die Hälfte (54,4%) der Studienteilnehmer empfanden diesen Zeitraum als viel zu lang. 16 (84,2%) der befragten Eltern (n=19) fühlten sich während dieser Zeit allein gelassen.** In der folgenden Frage wurden die Studienteilnehmer (n=23) gebeten anzugeben, wie zentral MHE in ihrem Leben in Prozent ist. **Im Durchschnitt nimmt MHE 48% ($M=48$; $SD=28,7$; $Min=5$; $Max=100$) das Leben der Betroffenen ein**

Hinsichtlich der Beurteilung der Versorgungssituation zeigt sich, dass 17 (70,8%) der Befragten (n=24) einen Kinder- bzw. einen Hausarzt/ärztin haben, der/die sich regelmäßig um die gesundheitlichen Probleme ihres Kindes kümmert. Die Zufriedenheit mit diesem Arzt/ dieser Ärztin wird auf einer Skala von 1-5 beurteilt; 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Hierbei ergibt sich $M=3,64$; $SD=0,70$. **21 (87,5%) der Befragten (n=24) gehen mit ihrem Kind zu einem speziell für die Erkrankung ausgebildeten**

Spezialisten. 83,3% besuchten diesen in den vergangenen 12 Monaten.

Ob es schwierig war, fachärztliche Hilfe zu erhalten, wurde von den Studienteilnehmern auf einer Skala von 1 bis 5 beurteilt; 1="extrem schwierig"; 5="gar nicht schwierig". Hierbei ergibt sich **M=2,26** und **SD=1,45**.

10 (41,7%) der befragten Eltern (n=23) müssen gelegentlich für die Gesundheitsversorgung ihres Kindes etwas bezahlen. Nur zwei der Teilnehmer fanden diese Belastung extrem hoch und fanden es auch extrem schwierig, finanzielle Unterstützung zu erhalten.

Bei der Inanspruchnahme nicht-ärztlicher Leistungen zeigt sich, dass hier die Teilnahme an der **Selbsthilfegruppe** sowie die **krankengymnastische Versorgung** im Vordergrund stehen. Des Weiteren zeigten sich ein hoher Bedarf an einer **Schulung** über MHE sowie ein mäßiger Bedarf an **Ergotherapie**, der jedoch nicht gedeckt ist.

Im Folgenden Abschnitt des Fragebogens wurden die **Qualität und die Zufriedenheit** der Eltern in Bezug auf die Gesundheitsversorgung ihres Kindes beschrieben. Itemkodierung: 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". **Ein niedriger Wert auf der Skala bedeutet eine große Unzufriedenheit.** Hinsichtlich der erhaltenen Informationen über die Erkrankung MHE während der Diagnosestellung zeigt sich ein Mittelwert **M=2,02**; **SD=0,85**. Bei der Zufriedenheit hinsichtlich der Zusammenarbeit des medizinischen Personals ist **M=2,80**; **SD=1,10**. Die Unterstützung durch die Schule zeigt einen Mittelwert von **M=2,45**; **SD=1,18**.

Die Zufriedenheit der Eltern bezüglich der Qualität der Gesundheitsversorgung im Allgemeinen ergibt einen Mittelwert von **M=2,96**; **SD=0,98**.

3.4 Vergleich der Versorgungssituation bei MHE der untersuchten Erwachsenenengruppen

Folgende Darstellungen zeigen die Versorgungssituation MHE-betroffener Erwachsener aus Sicht der Patienten sowie MHE-erkrankter Kinder aus Sicht der Eltern (vorliegende Studie) im Vergleich zu Ergebnissen aus Untersuchungen mit Eltern von Kindern mit diversen chronischen Erkrankungen (u. A. Asthma, Arthritis, Dermatitis, Diabetes Mellitus Typ 1, zystische Fibrose und Epilepsie) (Schmidt et al., in Druck) Die Vergleichsgruppe besteht aus 304 befragten Eltern (N=304), die im Durchschnitt 40 Jahre alt sind (M=40,01; SD=10,02). In 86,7% der Fälle füllten die Mütter die Fragebögen aus. In der vorliegenden Studie sind es 83,3%. Das Durchschnittsalter hier beträgt M=41,67; SD=5,83.

Das Durchschnittsalter der Kinder der Vergleichsgruppe zum Zeitpunkt der Diagnosestellung ist M=3,59; SD=2,81. **Bei den MHE-erkrankten Kindern in der vorliegenden Studie liegt es mit M=1,88 und SD=1,70 knapp zwei Jahre darunter.**

Der Schweregrad der Erkrankung der Kinder wird von den Eltern in der Vergleichsgruppe in 39 der Fälle (13,1%) als stark, in 99 der Fälle (33,2%) als mittel und in 160 der Fälle (53,7%) als leicht eingestuft.

Im Folgenden geht es um die Gesundheitsversorgung.

Tabelle 10 zeigt die Häufigkeiten in Prozent bezüglich der fachärztlichen Versorgung der zu vergleichenden Gruppen.

Tab. 10: fachärztliche Versorgung; Häufigkeiten in Prozent

Item	Facharztbesuche	Facharztbesuche	Schwierigkeiten	Zufriedenheit mit
Gruppe	Frage 3	im letzten Jahr	mit fachärztlicher Hilfe	Facharztbesuchen
	Frage 3	Frage 4	Frage 5	Frage 6
MHE-betroffene Erwachsene (n=20)	55,0	35,0	80,0	25,0
Eltern von Kindern mit... MHE (n=24)	87,5	83,3	75,0	41,7
...Asthma (n=122)	84,0	77,6	12,9	56,3
...Arthritis (n=42)	95,2	100,0	17,5	45,1
...Neurodermitis (n=41)	86,0	52,0	24,3	21,9
...Diabetes (n=26)	92,3	90,9	3,8	59,1
...C. P. (n=21)	62,5	71,4	13,6	25,5
...Zystische Fibrose (n=29)	91,7	89,0	23,0	63,1
...Epilepsie (n=23)	78,3	75,0	4,8	64,1

Chi-Quadrat-Tests ergeben für den Vergleich der Eltern von MHE-betroffenen Kindern mit den Eltern der Vergleichsgruppe signifikante Unterschiede bei der Frage zu „Schwierigkeiten mit fachärztlicher Hilfe“: Asthma ($\chi^2=14,5$; $p<,0005$), Arthritis ($\chi^2=18,9$; $p<,0005$), Neurodermitis ($\chi^2=13,9$; $p<,0005$), Diabetes ($\chi^2=23,9$; $p<,0005$), C.P. ($\chi^2=14,6$; $p<,0005$), zystische Fibrose ($\chi^2=12,3$; $p<,0005$), Epilepsie ($\chi^2=21,2$; $p<,0005$).

Folgende Tabelle bezieht sich auf die Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung. In diesem Abschnitt des Fragebogens, Fragen 19 bis 44, soll die Qualität und die Zufriedenheit der Patienten in Bezug auf ihre Gesundheitsversorgung beschrieben werden. Die Beschreibung der Qualität wird im Rahmen der Auswertungsroutine (Mittelwertbildung) zu sechs Skalen zusammengefasst. Die Ergebnisse zur Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung im Verhältnis zur Vergleichsgruppe zeigt Tabelle 11.

Tabelle 11: Vergleich der Erwachsenengruppen zur Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung

Gruppe		MHE-betroffene Erwachsene		Elter MHE-Betroffener Kinder		Vergleichsgruppe	
Skala	Anzahl Items	M	SD	M	SD	M	SD
Info zur Diagnose	5	1,91	1,13	2,02	0,85	3,05	0,97
Zusammenarbeit Personal	3	2,67	1,21	2,80	1,10	3,33	0,95
Umgang der Ärzte	5	2,46	0,88	2,46	0,76	3,41	1,01
Zufriedenheit Sprechstunde	4	2,71	0,91	2,95	0,83	3,10	0,93
Zufriedenheit allgemein	7	3,02	0,96	3,19	1,01	3,40	0,88
Unterstützung Schule	2	entfällt		2,45	1,18	2,33	0,94

Itemkodierung: 1=„nicht zufrieden“, 5=„äußerst zufrieden“.

Die Ergebnisse der Gruppen der betroffenen Erwachsenen und der Eltern wurden auf statistische Unterschiede hin analysiert. Der U-Test zeigt, dass beide Gruppen sich bezüglich allen Skalen nicht signifikant voneinander unterscheiden (Skala „Info zur Diagnose“: U=179; p=,46; Skala „Zusammenarbeit Personal“: U=199; p=,59; Skala „Umgang der Ärzte“: U=194; p=,53; Skala Zufriedenheit

Sprechstunde“: $U=162$; $p=,24$; Skala „Zufriedenheit allgemein“: $U=193$; $p=,52$). Auch t-Tests führen zu dem Selben Ergebnis.

Der Vergleich der Mittelwerte zwischen den Eltern MHE-erkrankter Kinder und der Vergleichsgruppe zeigt für die Skala „Info zur Diagnose“ einen hoch signifikanten Unterschied ($t(325)=4,95$; $p<,0001$; $SES=1,1$). Für die Skala „Zusammenarbeit Personal“ zeigt sich ein signifikanter Unterschied ($t(325)=2,5$; $p=0,013$; $SES=0,56$). Für die Skala „Umgang der Ärzte“ zeigt sich ein hoch signifikanter Unterschied ($t(326)=4,42$; $p<,0001$; $SES=0,94$). Für die Skala „Zufriedenheit Sprechstunde“ zeigt sich kein signifikanter Unterschied ($t(326)=0,75$; $p=,45$; $SES=0,1$). Für die Skala „Zufriedenheit allgemein“ zeigt sich kein signifikanter Unterschied ($t(326)=1,1$; $p=,28$; $SES=,24$). Für die Skala „Unterstützung durch die Schule“ zeigt sich kein signifikanter Unterschied ($t(326)=0,58$; $p=,56$; $SES=,13$).

3.5 Ergebnisse der Kategorie „Betroffene Kinder

3.5.1 Stichprobe, Kategorie „Kinder“

26 Studienteilnehmer (32,5%) im Alter von 5 bis 17 Jahren wurden der Kategorie „Betroffene Kinder“ zugeordnet.

3.5.2 Soziodemographie, Kategorie „Kinder“

Im ersten Teil des Fragebogens geht es um die Soziodemographie der befragten Kinder. Eine detaillierte Darstellung zeigt Tab 12.

Tab.12: Soziodemographische Merkmale der Kategorie „Betroffene Kinder“ (n=26)

Soziodemographische Merkmale	n=26	Häufigkeit	Gültige Prozente
Alter	5- 8 J.	6	23,1
	9-12 J.	12	46,2
	13-17 J.	8	30,7
Geschlecht	Weiblich	10	38,5
	Männlich	16	61,5
Anzahl der Geschwister	Keine	3	11,5
	Eine Schwester/ ein Bruder	15	57,7
	Zwei Geschwister	8	30,8
Schule (n=23)*	Grundschule	9	34,6
	Gesamtschule	2	7,7
	Privatunterricht	1	3,8
	Hauptschule	2	7,7
	Realschule	2	7,7
	Gymnasium	6	23,1
	Sonderschule	1	3,8

* Drei der befragten Kinder waren zum Zeitpunkt der Untersuchung unter sechs Jahre alt und besuchten noch nicht die Schule.

Eine detaillierte Verteilung des Alters der befragten Kinder zeigt

Abb. 10:

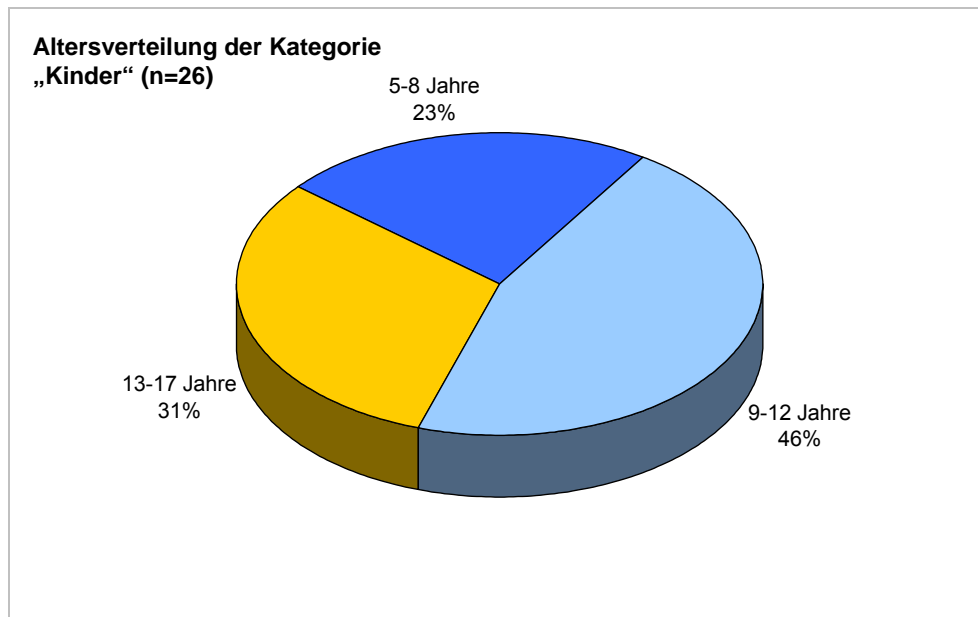


Abb. 10: Altersverteilung der Kategorie „Kinder“ (n=26)

3.5.3 Fragen zur Versorgung, Kategorie „Kinder“

Die folgenden Fragen beziehen sich auf die Versorgungssituation der Kinder aus deren Sicht.

Im ersten Teil, Fragen 17.1 bis 17.7, geht es um das Verhältnis der behandelnden Kinder zu ihrem Arzt, der sie wegen ihrer Exostosen behandelt.

Es werden Aussagen getroffen, die mit 1=“stimmt gar nicht“ bis 4=“stimmt sehr“ beurteilt werden. Ein hoher Wert steht für große Zufriedenheit bezüglich der Beziehung zu ihrem Arzt.

Die folgende Tabelle 13 zeigt die Mittelwerte, Standardabweichungen sowie Minimum und Maximum.

Tab.13: Verhältnis der Kinder zu ihrem Arzt

Frage	n	M	SD	Min	Max
17.1	23	3	1,0	1	4
17.2	24	3	0,9	1	4
17.3	23	3	1,0	1	4
17.4	24	3	1,0	1	4
17.5	23	3	0,8	1	4
17.6	24	3	1,1	1	4
17.7	24	3	0,9	1	4

Die Fragen 18.1 bis 18.3 beziehen sich darauf, wie die Lehrer aus Sicht der Kinder mit der Erkrankung der Kinder umgehen.

61,6% der befragten Kinder (n=23) verneinen die Frage, ihre Lehrer würden sich gut mit der Erkrankung auskennen. 76,9% sind außerdem der Meinung, ihre Lehrer hätten wenig bis gar kein Interesse daran.

Ob die Lehrer Verständnis dafür hätten, dass die Kinder wegen ihrer Erkrankung mal „nicht so gut drauf“ seien, wird mit „trifft sehr zu“ bis „trifft gar nicht zu“ auf einer Skala von eins bis vier nahezu gleichmäßig verteilt beantwortet.

Auf die offene Frage 19, ob es etwas gäbe, was die Lehrer für die Kinder tun könnten, damit es ihnen in der Schule besser geht, antworten vier Kinder. Hier wird drei Mal darum gebeten, die Lehrer sollten mehr Rücksicht auf sie nehmen. Ein Kind wünscht sich mehr Informationen über die Erkrankung durch die Lehrer.

Fragen 20.1 bis 20.4 behandeln das Thema „Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen“. 96,2% der befragten Kinder (n=26) gibt an, sie hätten wenig bis gar keinen Kontakt zu anderen Kindern mit

Exostosen. Nahezu die Hälfte aller Befragten wünscht sich allerdings den Kontakt und ist der Meinung, der Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen könnte ihnen helfen.

Bei Frage 21 handelt es sich wieder um eine offene Frage. Die Kinder sollen etwas nennen, was ihnen außer der ärztlichen Versorgung hilft, besser mit den Exostosen zurecht zu kommen. Eine detaillierte Darstellung der gegebenen Antworten zeigt Tabelle 14.

Tab.14: gewünschte Hilfe im Umgang mit den Exostosen (n=14)

	Häufigkeiten	%
Krankengymnastik	5	19,2
Kontakt zu anderen betroffenen Kindern	4	15,4
Kindergerechtes Infomaterial	2	7,7
Selbsthilfegruppe	2	7,7

Der Fragebogen wurde insgesamt von 69,2% der befragten Kinder mit der Schulnote eins oder zwei bewertet.

3.5.4 Zusammenfassung der Ergebnisse der Kategorie „Kinder“

Hinsichtlich der Versorgungssituation der betroffenen Kinder zeigt sich aus deren Sicht folgendes Bild.

Das Verhältnis zwischen ihnen und ihrem behandelnden Arzt/Ärztin wird eher positiv beurteilt. Auf einer Skala von eins bis vier ergibt sich diesbezüglich bei allen Fragen ein Mittelwert zwischen $M=2,62$ und $M=3,08$ mit Standardabweichungen zwischen $SD=0,83$ und $SD=1,10$; dabei gilt, je höher der Wert, desto besser die Arzt-Patienten-Beziehung.

Hinsichtlich der Situation in der Schule zeigt sich ein anderes Bild: 61,6% der befragten Kinder (n=23) verneinen die Frage,

ihre Lehrer würden sich gut mit der Erkrankung auskennen. 76,9% sind außerdem der Meinung, ihre Lehrer hätten wenig bis gar kein Interesse daran. Ob die Lehrer Verständnis dafür hätten, dass die Kinder wegen ihrer Erkrankung mal „nicht so gut drauf“ seien, wird mit „trifft sehr zu“ bis „trifft gar nicht zu“ auf einer Skala von eins bis vier nahezu gleichmäßig verteilt beantwortet. Auf die offene Frage 19, ob es etwas gäbe, was die Lehrer für die Kinder tun könnten, damit es ihnen in der Schule besser geht, antworten vier Kinder. **Hier wird drei Mal darum gebeten, die Lehrer sollten mehr Rücksicht auf sie nehmen.**

Bei dem Thema „Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen“ geben 96,2% der befragten Kinder (n=26) an, sie hätten wenig bis gar keinen Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen. Nahezu die Hälfte aller Befragten wünscht sich allerdings den Kontakt und ist der Meinung, der Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen könnte ihnen helfen.

Auch bezüglich der offenen Frage, was den Kindern außer der ärztlichen Versorgung helfen könnte, stehen der **Kontakt** zu anderen Kindern mit Exostosen sowie die **Krankengymnastik** im Vordergrund. Ein Kind wünscht sich **kindgerechtes Infomaterial**, und ein befragtes Kind sieht die **Selbsthilfegruppe** als besonders hilfreich.

3.6 Ergebnisse der Kategorie „Experten“

3.6.1 Stichprobe, Kategorie „Experten“

15 Studienteilnehmer (17,6%) im Alter von 36 bis 64 Jahren gehören zu der Kategorie „behandelnde Ärzte/ Experten“. Bis auf eine Ausnahme sind alle männlich.

3.6.2 Soziodemographie, Kategorie „Experten“

12 der befragten Ärzte (80%) sind Orthopäden, einer gehört dem Fachbereich Pädiatrie an und zwei der Fachrichtung Kinderchirurgie. Die durchschnittliche Dauer der Ausübung des Berufes beträgt 21 Jahre. Eine detaillierte Darstellung der Dauer der beruflichen Tätigkeit zeigt Abb 11.

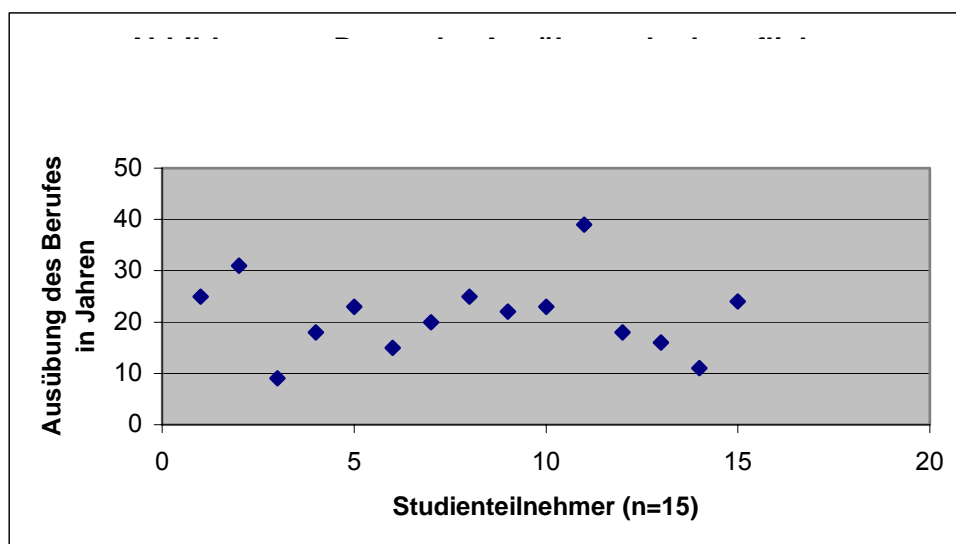


Abb. 11 : Dauer der Ausübung der beruflichen Tätigkeit

Von den 15 befragten Ärzten sind derzeit 9 (60,0%) in einem Krankenhaus beschäftigt. Hier wiederum besetzen 6 Teilnehmer die Position des Chefarztes, außerdem nahmen 2 Oberärzte und ein

Assistenzarzt an der Erhebung teil. 6 (40,0%) der Studienteilnehmer sind in einer Praxis tätig.

Tabelle 15: Darstellung der beruflichen Position (n=15)

	Krankenhaus			Praxis
Häufigkeit	9			6
Prozent	60,0			40,0
	Chef- arzt	Ober- arzt	Assistenz- arzt	
Häufigkeit	6	2	1	
Prozent	40,0	13,3	6,7	

3.6.3 Beurteilung von Aussagen über die Versorgung von MHE-Patienten, Kategorie „Experten“

Die folgenden Angaben beziehen sich auf die Versorgung der an MHE erkrankten Patienten aus Sicht der behandelnden Ärzte. Die Antwortmöglichkeiten der ersten 16 Fragen reichen auf einer Skala von 1 bis 4; 1=„trifft überhaupt nicht zu“, 4=„trifft voll und ganz zu“. Die folgende Tabelle zeigt sowohl den Mittelwert mit Minimum und Maximum der Antworten als auch die Standardabweichung. Die erste Spalte beinhaltet die Fragennummer.

Tabelle 16: Beurteilung von Aussagen über die Versorgung von MHE-Patienten aus Sicht der behandelnden Ärzte

Fragenummer (s. Anlage J)	Mittelwert	Standart- abweichung	Minimum	Maximum
1. Wissen über MHE	3,67	0,62	2	4
2. Behandlung häufig	3,20	0,86	2	4
3. stelle Erstdiagnose	3,00	0,65	2	4
4. Zeitraum Diagnose lang	2,53	0,92	1	4
5. indiv. Bedürfnisse	3,47	0,52	3	4
6. ausreichend Patientenwissen	2,43	0,94	1	4
7. Info MHE	3,80	0,41	3	4
8. SDM möglich	3,73	0,59	2	4
9. SDM wichtig	4,00	0,00	4	4
10. Überweisung zügig	2,73	1,03	1	4
11. Kommuni- kation Ärzte gut	3,00	1,04	1	4
12. psych. Beratung sinnvoll	3,20	0,77	2	4
13. SHG hilfreich	3,60	0,51	3	4
14. Info über SHG	2,40	1,30	1	4
15. Hinweis SHG	2,80	1,32	1	4
16. Kollegen Wissen SHG	2,13	0,74	1	3

1=trifft überhaupt nicht zu, 2=trifft eher nicht zu, 3=trifft etwas zu, 4=trifft voll und ganz zu

Aussage 1: Ich verfüge über ein Ausreichendes Wissen über MHE.

Die Frage, ob die behandelnden Ärzte über ein ausreichendes Wissen über MHE verfügen, wurde von 73,3% mit „trifft voll und ganz zu“ beantwortet. Lediglich ein Studienteilnehmer beantwortete diese Frage mit „trifft ein wenig zu“. Keiner der Teilnehmer antwortete „trifft überhaupt nicht zu“.

Aussagen 2 und 3: Ich behandle häufig Patienten mit MHE, und ich stelle meistens die Erstdiagnose.

46,7% der Experten geben an, häufig Patienten mit MHE zu behandeln, keiner der Teilnehmer bewertet die Aussage mit „trifft überhaupt nicht zu“. Es stellten 20,0% bislang die Erstdiagnose.

Aussage 4: Den Zeitraum zwischen dem ersten Besuch der Patienten bei ihrem Arzt und der Diagnosestellung empfinde ich oft als zu lang.

Den Zeitraum zwischen dem ersten Besuch der Patienten bei ihrem Arzt und der Diagnosestellung finden über die Hälfte der Ärzte (53,3%) viel oder etwas zu lang. Zwei der Studienteilnehmer bewerten die Aussage mit „trifft überhaupt nicht zu“.

Aussage 5: Ich verfüge über ausreichend Möglichkeiten, auf die individuellen Bedürfnisse meiner Patienten einzugehen.

Alle befragten Ärzte (100,0%) bewerten diese Aussage mit „trifft voll und ganz zu“.

Aussage 6: Meine Patienten verfügen über ein ausreichendes Wissen über MHE.

Ob die Patienten über ein ausreichendes Wissen über ihre Erkrankung verfügen, wurde mit allen vier Skalenwerten, nahezu gleichmäßig verteilt, beantwortet.

Aussage 7: Ich kann meine Patienten ausreichend über das Krankheitsbild MHE informieren.

Alle befragten Ärzte (100,0%) bewerten diese Aussage mit „trifft voll und ganz zu“.

Aussagen 8 und 9: Shared-decision-making (SDM)

80,0% der Experten gehen davon aus, ihre Patienten seien in der Lage, gemeinsam mit ihnen Entscheidungen zu treffen. 100,0% halten dieses auch für besonders wichtig.

Aussage 10: Ich denke, die Überweisung an einen Spezialisten erfolgt in der Regel recht zügig.

Die Überweisung der Patienten an einen Spezialisten erfolgt aus Sicht von 60% der Experten recht zügig. 26,7% empfinden die Zeit als etwas zu lang, 13,3% als viel zu lang.

Aussage 11: Ich denke die Zusammenarbeit und die Kommunikation der Ärzte untereinander ist sehr produktiv.

Die Aussage, die Zusammenarbeit und Koordination der Ärzte untereinander sei produktiv, wurde von 60,0% mit „trifft voll und ganz zu“ bzw. mit „trifft etwas zu“ bewertet. Nur 26,7% gaben „trifft ein wenig zu“ an. Ein Studienteilnehmer bewertet diese Aussage mit „trifft überhaupt nicht zu“.

Aussagen 12 bis 15: nicht ärztliche Leistungen

80,0% der Experten sind der Meinung, eine psychologische Beratung könne für viele Betroffene sehr sinnvoll sein. Keiner der Befragten lehnt dies prinzipiell ab. Auch der Beitritt in eine Selbsthilfegruppe (SHG) kann für 100,0% der befragten Ärzte eine hilfreiche Unterstützung für ihre Patienten sein. Allerdings gaben nur ein Drittel der Ärzte an, über ausreichend Informationen über die Existenz einer Selbsthilfegruppe zu verfügen. Ein weiteres Drittel verfügt über

keinerlei Informationen diesbezüglich. Das letzte Drittel befindet sich genau dazwischen. Allerdings weisen laut eigenen Angaben 60,0% der befragten Ärzte ihre Patienten und deren Angehörige auf die SHG hin.

Aussage 16: Ich denke, die meisten meiner Kollegen verfügen über ein ausreichendes Wissen über MHE.

Auf die Frage, ob die meisten ihrer Kollegen über ein ausreichendes Wissen verfügen, antwortete niemand „trifft voll und ganz zu“. 33,3% beantwortete dies mit „trifft etwas zu“ und zwei Drittel der befragten Ärzte antworteten, dies treffe wenig bzw. gar nicht zu.

Folgende Fragen, Frage 17 bis 21, unterliegen nicht mehr der Bewertungsskala von 1 bis 4. Sie wurden entweder als offene Fragen oder mit den Antwortmöglichkeiten „ja“ oder „nein“ formuliert.

Frage 17: Denken Sie, MHE sollte trotz der Seltenheit bekannter gemacht werden?

86,7% der befragten Ärzte sind der Meinung, MHE sollte trotz der Seltenheit bekannter gemacht werden. Zwei Teilnehmer (13,3%) sind nicht dieser Ansicht.

Frage 18: Woher beziehen Sie Ihr Wissen über MHE?

Alle an der Studie teilnehmenden Ärzte beziehen ihr Wissen über die Erkrankung MHE über Literatur. 80,0% zusätzlich über Fortbildungen und 60,0% zusätzlich über das Internet.

Frage 19: Denken Sie, Sie verfügen über ausreichende Ressourcen/Wissen, um Ihre Patienten befriedigend zu behandeln?

Auf die Frage, ob die behandelnden Ärzte ihrer Meinung nach über ausreichend Ressourcen/Wissen verfügen, antworteten 80,0% „ja“.

13,3% verneinten dieses, und ein Teilnehmer beantwortete diese Frage nicht.

Frage 20: Wie viele MHE-Patienten haben Sie etwa schon insgesamt behandelt bzw. behandeln Sie derzeit?

Im Durchschnitt befinden bzw. befanden sich 18 an MHE leidenden Patienten pro befragten Arzt/Ärztin in Behandlung. Eine detaillierte Verteilung zeigt Abb. 12

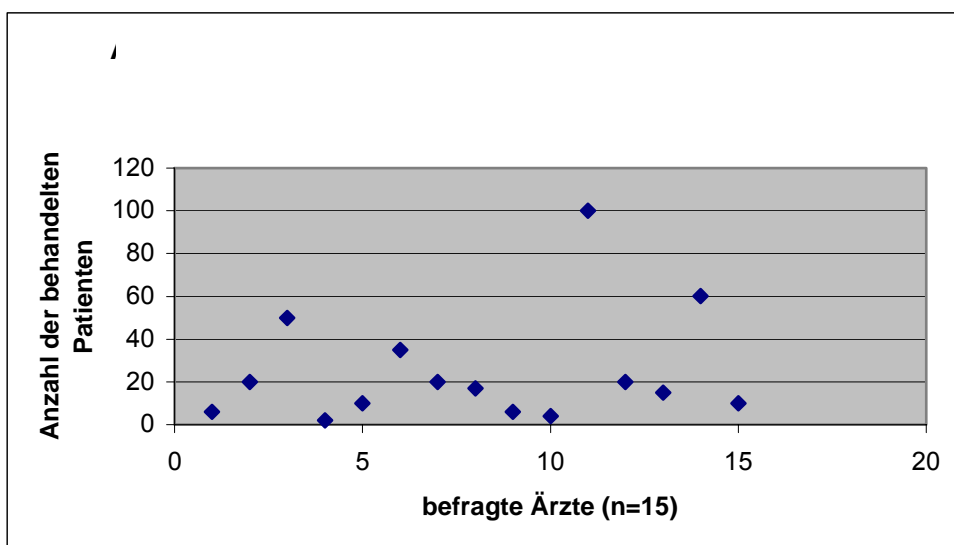


Abb. 12: Verteilung der Anzahl der behandelten Patienten

Frage 21: Wie schätzen Sie die Versorgungssituation von MHE-Erkrankten in Deutschland ein?

Bei der letzten Frage wurde eine Einschätzung der Versorgungssituation von MHE-Erkrankten in Deutschland in Prozent (0%=völlig unzureichend bis 100%=ganz ausgezeichnet) erbeten. Hier ergibt sich ein Mittelwert von 59%. Eine detaillierte Verteilung zeigt Abb. 13

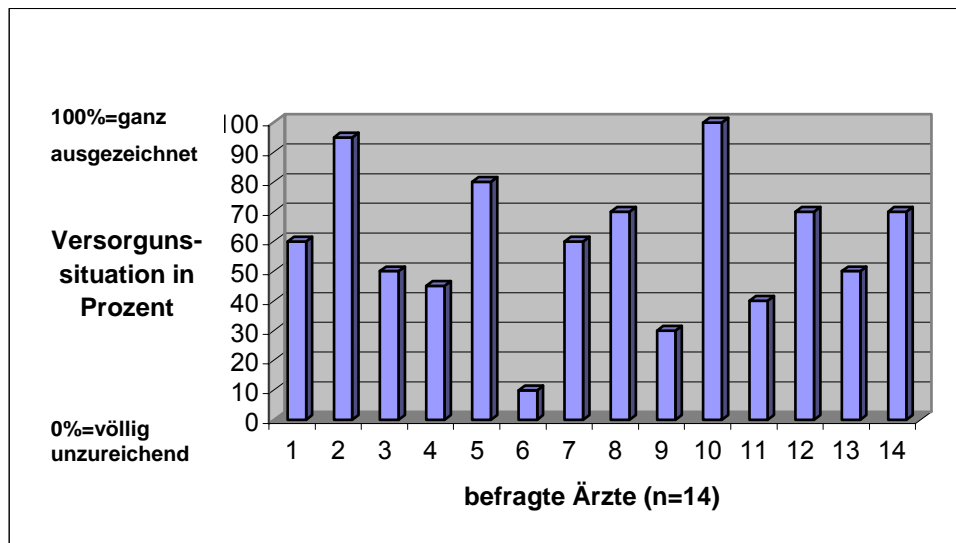


Abb. 13: Versorgungssituation in Deutschland

3.6.4 Zusammenfassung der Ergebnisse, Kategorie „Experten“

15 Studienteilnehmer (17,6%) im Alter von 36 bis 64 Jahren gehören zu der Kategorie „behandelnde Ärzte/ Experten“. Bis auf eine Ausnahme sind alle männlich. 12 der befragten Ärzte (80%) sind Orthopäden, einer gehört dem Fachbereich Pädiatrie an und zwei der Fachrichtung Kinderchirurgie.

Die durchschnittliche Dauer der Ausübung des Berufes beträgt **21 Jahre**.

Die Frage, ob die behandelnden Ärzte über ein ausreichendes Wissen über MHE verfügen, wurde von 73,3% mit „trifft voll und ganz zu“ beantwortet. Lediglich ein Studienteilnehmer beantwortete diese Frage mit „trifft ein wenig zu“. Keiner der Teilnehmer antwortete „trifft überhaupt nicht zu“. Knapp die Hälfte (46,7%) der Experten gibt an, häufig Patienten mit MHE zu behandeln, keiner der Teilnehmer bewertet die Aussage mit „trifft überhaupt nicht zu“. Es stellten 20% bislang die Erstdiagnose. Den **Zeitraum zwischen dem ersten Besuch der Patienten bei ihrem**

Arzt und der Diagnosestellung finden über die Hälfte der Ärzte (53,3%) viel oder etwas zu lang.

Alle befragten Ärzte (100%) bewerten die Aussage, sie verfügen über ausreichend Möglichkeiten auf die individuellen Bedürfnisse ihrer Patienten einzugehen mit „trifft voll und ganz zu“.

Ob die Patienten über ein ausreichendes Wissen über ihre Erkrankung verfügen, wurde mit allen vier Skalenwerten, nahezu gleichmäßig verteilt, beantwortet.

Alle befragten Ärzte (100%) sind der Meinung, sie können ihre Patienten ausreichend über das Krankheitsbild MHE informieren. Außerdem gehen 80% der Experten davon aus, ihre Patienten seien in der Lage, gemeinsam mit ihnen Entscheidungen zu treffen. 100% halten dieses auch für besonders wichtig.

80% der Experten sind der Meinung, eine **psychologische Beratung** könne für viele Betroffene sehr sinnvoll sein. Keiner der Befragten lehnt dies prinzipiell ab. **Auch der Beitritt in eine Selbsthilfegruppe (SHG) kann für 100% der befragten Ärzte eine hilfreiche Unterstützung für ihre Patienten sein. Allerdings gaben nur ein Drittel der Ärzte an, über ausreichend Informationen über die Existenz einer Selbsthilfegruppe zu verfügen.** Ein weiteres Drittel verfügt über keinerlei Informationen diesbezüglich. Das letzte Drittel befindet sich genau dazwischen. Allerdings weisen laut eigenen Angaben 60% der befragten Ärzte ihre Patienten und deren Angehörige auf die SHG hin.

Auf die Frage, ob die meisten ihrer Kollegen über ein ausreichendes Wissen verfügen, antwortete niemand „trifft voll und ganz zu“. 33,3%

beantwortete dies mit „trifft etwas zu“ und zwei Drittel der befragten Ärzte antworteten, dies treffe wenig bzw. gar nicht zu.

86,7% der befragten Ärzte sind der Meinung, MHE sollte trotz der Seltenheit bekannter gemacht werden. Zwei Teilnehmer (13,3%) sind nicht dieser Ansicht. **Auf die Frage, ob die behandelnden Ärzte ihrer Meinung nach über ausreichend Ressourcen/Wissen verfügen, antworteten 80% „ja“.** 13,3% verneinten dieses, und ein Teilnehmer beantwortete diese Frage nicht. Im Durchschnitt befinden bzw. befanden sich **18** an MHE leidenden Patienten pro befragten Arzt/Ärztin in Behandlung.

Bei der letzten Frage wurde eine Einschätzung der Versorgungssituation von MHE-Erkrankten in Deutschland in Prozent (0%=völlig unzureichend bis 100%=ganz ausgezeichnet) erbeten. **Hier ergibt sich ein Mittelwert von 59,0%.**

4 Diskussion der Ergebnisse

4.1 Zusammenfassende Diskussion

Insgesamt nahmen 85 Personen im Alter zwischen 5 und 65 Jahren an der vorliegenden Untersuchung teil. Zu berücksichtigen hierbei ist, dass MHE mit einer Inzidenz von 1:50.000 (ca. 1600 Erkrankte in Deutschland) eine seltene Erkrankung ist. Die Vergleichsgruppe, auf die im Folgenden mehrmals eingegangen wird, besteht aus 304 befragten Eltern (N=304). Hier handelt es sich um Eltern von Kindern mit diversen chronischen Erkrankungen, die jedoch sehr viel häufiger sind (wie z.B. Asthma oder Diabetes).

20 (23,5%) der Studienteilnehmer (N=85) im Alter von 20 bis 65 Jahren werden der Kategorie „Betroffene Erwachsene“ zugeordnet. 45,0% sind weiblich.

Im Durchschnitt bemerkten die Studienteilnehmer (n=18) die ersten Symptome mit 4,2 Jahren (M=4,22; SD=4,05; Min=0; Max=15).

Bei 90,0% der Befragten Betroffenen (n=20) äußerten sich die ersten Symptome in Form von Exostosen. Bei 35,0% wurden diese von Schmerzen und bei über der Hälfte (55,0%) von Funktionseinschränkungen begleitet.

Im Durchschnitt nimmt MHE 45,3% (M=45,32; SD=30,90; Min=1; Max=100) das Leben der betroffenen Erwachsenen ein.

24 (28,2%) der Studienteilnehmer (N=85) im Alter von 31 bis 55 Jahren gehören der Kategorie „Eltern“ an. Bei anderen Befragungen von Eltern mit chronisch erkrankten Kindern, wie zum Beispiel die Befragungen im Rahmen der CHS-SUN-Studie (s.o.), die hier mehrmals als Vergleichsgruppe fungiert, handelt es sich um ähnliche

Größenordnungen. Je nach Häufigkeit der Erkrankungen ergab sich dort bei Eltern von Kindern mit Diabetes $n=26$, bei Eltern von Kindern mit Cerebralparese $n=21$ oder Eltern von Kindern mit Arthritis $n=41$. Im Durchschnitt sind die Probanden der Vergleichsgruppe 40 Jahre alt ($M=40,01$; $SD=10,02$). In 86,7% der Fälle füllten die Mütter die Fragebögen aus. In der vorliegenden Studie sind es 83,3%. Das Durchschnittsalter hier beträgt $M=41,67$; $SD=5,83$. Damit sind die Voraussetzungen für eine gute Vergleichbarkeit gegeben.

Im Durchschnitt bemerkten die Studienteilnehmer ($n=24$) in der vorliegenden Studie die ersten Symptome bei ihren Kindern mit 1,9 Jahren ($M=1,88$; $SD=1,70$; $Min=0$; $Max=7$). Damit liegen sie knapp zwei Jahre unter der Vergleichsgruppe. Dies könnte damit begründet werden, dass sich in den meisten Fällen die Krankheit in Form von Exostosen als sichtbare Symptome äußerte, die schon sehr früh in Erscheinung traten.

Durchschnittlich nimmt MHE 48,3% ($M=48,3$; $SD=28,7$; $Min=5$; $Max=100$) das Leben der Betroffenen ein. Damit unterscheiden sie sich kaum von den Eltern betroffener Kinder.

26 Studienteilnehmer (32,5%) im Alter von 5 bis 17 Jahren wurden der Kategorie „Betroffene Kinder“ zugeordnet.

15 Studienteilnehmer (17,6%) im Alter von 36 bis 64 Jahren gehören zu der Kategorie „behandelnde Ärzte/ Experten“. Bis auf eine Ausnahme sind alle männlich. 12 der befragten Ärzte (80%) sind Orthopäden, einer gehört dem Fachbereich Pädiatrie an und zwei der Fachrichtung Kinderchirurgie.

Die durchschnittliche Dauer der Ausübung des Berufes beträgt 21 Jahre. Es haben also die meisten der Studienteilnehmer eine

langjährige Erfahrung, was wiederum gute Voraussetzungen für eine Beurteilbarkeit bezüglich der Versorgungssituation bei MHE-Patienten schafft.

4.1.1 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 1

Durch Vorgespräche im Rahmen der Pilotstudie mit einzelnen Studienteilnehmern ergab sich die Annahme, dass die Haus-/Kinderärztliche Versorgung MHE-Erkrankter lückenhaft ist. Da in der Regel die Hausärzte diejenigen sind, die als erste Ansprechpartner für die Patienten fungieren, kann sich schon sehr früh der Weg für den Patienten durch das Gesundheitswesen bahnen. Entscheidende Faktoren, wie z. B. die zügige Überweisung an einen Spezialisten oder dass sich die Patienten bei ihrem Hausarzt gut aufgehoben fühlen, tragen wesentlich zum weiteren Verlauf für den Patienten bei.

Fragestellung 1: Ist aus Sicht der Betroffenen die Betreuung MHE-Erkrankter durch Haus- und/oder Kinderärzte zufrieden stellend?

Aus Sicht der betroffenen Erwachsenen:

Die Erhebung ergibt, dass 15 (75,0%) der Befragten (n=20) einen Hausarzt/ärztin haben, der/die sich regelmäßig um ihre gesundheitlichen Probleme kümmert. Die Zufriedenheit mit diesem Arzt/ dieser Ärztin wird auf einer Skala von 1-5 beurteilt; 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Hierbei ergibt sich $M=3.56$; $SD=0,89$. Das bedeutet, die Hausärztliche Versorgung wird eher zufrieden stellend beurteilt.

Aus Sicht der Eltern:

17 (70,8%) der befragten Eltern (n=24) haben einen Kinder- bzw. einen Hausarzt/ärztin, der/die sich regelmäßig um die gesundheitlichen Probleme ihres Kindes kümmert. Die Zufriedenheit mit diesem Arzt/ dieser Ärztin wird auf einer Skala von 1-5 beurteilt; 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Hierbei ergibt sich $M=3,64$; $SD=0,70$. Die Haus-/ Kinderärztliche Versorgung wird von den Eltern, wie von den betroffenen Erwachsenen, als eher zufrieden stellend beurteilt.

Aus Sicht der erkrankten Kinder:

Auch die Kinder wurden zu ihrer Zufriedenheit bezüglich ihres behandelnden Arztes (dies beinhaltet sowohl Haus-/und Kinderärzte als auch Fachärzte!) befragt. Das Verhältnis zwischen ihnen und ihrem behandelnden Arzt/Ärztin wird eher positiv beurteilt. Auf einer Skala von eins bis vier ergibt sich diesbezüglich bei allen Fragen ein Mittelwert zwischen $M=2,62$ und $M=3,08$ mit Standardabweichungen zwischen $SD=0,83$ und $SD=1,10$; dabei gilt, je höher der Wert, desto besser die Arzt-Patienten-Beziehung.

Zusammenfassend kann man sagen, dass sich die Ergebnisse in allen befragten Gruppen ähneln. Alle in dieser Untersuchung befragten Probanden beurteilen ihre Haus-/ Kinderärztliche Versorgung, und damit den ersten prägenden Faktor auf dem Weg durch das Gesundheitssystem, als eher zufrieden stellend.

4.1.2 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 2

Der nächste Schritt für die meisten Patienten ist das Aufsuchen eines Facharztes/Spezialisten. Die Zufriedenheit diesbezüglich wird im Folgenden diskutiert.

Fragestellung 2: Ist aus Sicht der Betroffenen die Behandlung durch den Facharzt /Experten zufrieden stellend?

Aus Sicht der betroffenen Erwachsenen:

11 (55,0%) der an MHE erkrankten Erwachsenen (n=19) gehen zu einem für die Erkrankung ausgebildeten Spezialisten. 35,0% besuchten diesen in den vergangenen 12 Monaten.

Ob es schwierig war, fachärztliche Hilfe zu erhalten, wurde von den Studienteilnehmern auf einer Skala von 1 bis 5 beurteilt; 1="extrem schwierig"; 5="gar nicht schwierig". Hierbei ergibt sich $M=1,94$ und $SD=1,26$.

Bei der Zufriedenheit mit der fachärztlichen Behandlung ist $M=2,88$ und $SD=1,31$; dabei gilt 1="nicht zufrieden"; 5="äußerst zufrieden".

Aus Sicht der Eltern:

21 (87,5%) der Befragten (n=24) gehen mit ihrem Kind zu einem speziell für die Erkrankung ausgebildeten Spezialisten. 83,3% besuchten diesen in den vergangenen 12 Monaten.

Ob es schwierig war, fachärztliche Hilfe zu erhalten, wurde von den Studienteilnehmern auf einer Skala von 1 bis 5 beurteilt; 1="extrem

schwierig“; 5=“gar nicht schwierig“. Hierbei ergibt sich $M=2,26$ und $SD=1,45$.

Bei der Zufriedenheit mit der fachärztlichen Behandlung ist $M=3,09$ und $SD=1,16$; dabei gilt 1=“nicht zufrieden“; 5=“äußerst zufrieden“.

Aus Sicht der erkrankten Kinder:

Hier zeigt sich, dass die befragten Kinder das Verhältnis zwischen ihnen und ihrem behandelnden Arzt/Ärztin eher als zufrieden stellend beurteilen .

Zusammenfassend zeigt sich, dass über die Hälfte der betroffenen Erwachsenen (55,0%) einen Facharzt wegen ihrer Exostosen besuchen. Bei den Eltern betroffener Kinder sind es sogar 87,5%. Beide Erwachsenen-Gruppen fanden es schwierig, fachärztliche Hilfe zu bekommen. Die fachärztliche Versorgung wird auf einer Skala von 1 bis 5 von beiden Gruppen mit einem Mittelwert von $M=2,88$ bzw. $M=3,09$, also ziemlich genau in der Mitte beurteilt. Beide Erwachsenen-Gruppen unterscheiden sich diesbezüglich nicht signifikant. Hingegen ergeben Chi-Quadrat-Tests für den Vergleich der Eltern von MHE-betroffenen Kindern mit den Eltern chronisch kranker Kinder der Vergleichsgruppe signifikante Unterschiede bei der Frage zu „Schwierigkeiten mit fachärztlicher Hilfe“. So geben z.B. 80% der betroffenen Erwachsenen und 75% der Eltern MHE-erkrankter Kinder an, es sei schwierig gewesen, fachärztliche Hilfe zu bekommen. Im Vergleich dazu geben nur 3,8% der Eltern von Kindern mit Diabetes und 12,9% der Eltern von Kindern mit Asthma Schwierigkeiten diesbezüglich an. Die Eltern MHE-erkrankter Kinder haben deutlich mehr Schwierigkeiten mit ihrer fachärztlichen Betreuung als die Vergleichsgruppe und sind insgesamt eher unzufrieden. Hier findet die Bundesselbsthilfegruppe (SHG) erneut ihre große Bedeutung. Es gibt Grund zur Annahme, dass die

Schwierigkeiten mit der fachärztlichen Betreuung u. A. darin begründet liegt, dass MHE eine seltene Erkrankung ist und es dementsprechend wenig Ärzte mit viel Erfahrung mit MHE gibt. Über den Austausch der Betroffenen in der SHG können Mitglieder Ärzte, mit denen sie gute Erfahrungen gemacht haben, untereinander weiter empfehlen, was den Weg z. B. zur Diagnosefindung oder die Beratung über verschiedene Therapieverfahren deutlich erleichtern kann.

Stellungnahme der Fachärzte:

Von 63 potenziellen Teilnehmern (es wurden 63 Fachärzte, Orthopäden, Chirurgen sowie Kinderärzte, über die Studie informiert und erhielten die Fragebögen) nahmen 15 (23,8%) an der Untersuchung teil. Bei allen Teilnehmern handelt es sich um Ärzte, die sich schon mit der Exostosenkrankheit befasst haben. Im Durchschnitt befinden bzw. befanden sich 18 an MHE leidenden Patienten pro befragten Arzt/Ärztin in Behandlung.

Die Frage, ob die behandelnden Ärzte über ein ausreichendes Wissen über MHE verfügen, wurde von 73,3% mit „trifft voll und ganz zu“ beantwortet. Lediglich ein Studienteilnehmer beantwortete diese Frage mit „trifft ein wenig zu“. Keiner der Teilnehmer antwortete „trifft überhaupt nicht zu“. Alle befragten Ärzte (100%) bewerten die Aussage, sie verfügen über ausreichend Möglichkeiten auf die individuellen Bedürfnisse ihrer Patienten einzugehen mit „trifft voll und ganz zu“. Alle befragten Ärzte (100%) sind außerdem der Meinung, sie können ihre Patienten ausreichend über das Krankheitsbild MHE informieren.

Das Wissen der Kollegen wird deutlich schlechter beurteilt. Auf die Frage, ob die meisten ihrer Kollegen über ein ausreichendes Wissen verfügen, antwortete niemand „trifft voll und ganz zu“. 33,3%

beantwortete dies mit „trifft etwas zu“ und zwei Drittel der befragten Ärzte antworteten, dies treffe wenig bzw. gar nicht zu.

Auf die Frage, ob die behandelnden Ärzte ihrer Meinung nach über ausreichend Ressourcen/Wissen verfügen, antworteten 80% „ja“.

Bei der Befragung bezüglich der fachärztlichen Versorgung zeigt sich eine deutliche Diskrepanz zwischen den Patienten und den befragten Ärzten. Die Selbsteinschätzung der befragten Spezialisten bezüglich der Qualität der Versorgung ihrer Patienten zeigt eindeutig eine bessere Versorgung als sie aus Patientensicht wahrgenommen wird.

4.1.3 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 3

Auch die medikamentöse Versorgung von chronisch kranken Patienten kann für die Qualität der Versorgung eine entscheidende Rolle spielen. Ob überhaupt eine medikamentöse Therapie in Anspruch genommen wird und ob diese zufriedenstellend ist, wird im folgenden Abschnitt diskutiert.

Fragestellung 3: Ist aus Sicht der Betroffenen die medikamentöse Versorgung MHE-Betroffener zufrieden stellend?

Aus Sicht der betroffenen Erwachsenen:

11 (55,0%) der Befragten (n=20) verneinten die Frage, ob sie in den letzten 12 Monaten ärztlich verschriebene Medikamente einnahmen. Von den verbleibenden 9 Teilnehmern fand es niemand schwierig, Verordnungen für diese Medikamente zu erhalten. Die Zufriedenheit bezüglich der verschriebenen Medikamente wird mit allen Antwortmöglichkeiten nahezu gleichmäßig verteilt beantwortet.

80,0% der Befragten verneinten außerdem die Frage, ob sie in den letzten 12 Monaten Medikamente einnahmen, die nicht vom Arzt verordnet waren.

Aus Sicht der Eltern:

18 (75,0%) der Befragten (n=24) verneinten die Frage, ob ihr Kind in den letzten 12 Monaten ärztlich verschriebene Medikamente einnahm. Von den verbleibenden 5 Teilnehmern fand es niemand schwierig, Verordnungen für diese Medikamente zu erhalten. Außerdem waren alle zufrieden oder sehr zufrieden mit den verordneten Medikamenten.

75,0% der Befragten verneinten außerdem die Frage, ob ihr Kind in den letzten 12 Monaten Medikamente einnahm, die nicht vom Arzt verordnet waren.

Insgesamt zeigt sich, dass die medikamentöse Versorgung bei der Exostosenkrankheit eine untergeordnete Rolle spielt. Die meisten Befragten nehmen keine Medikamente ein. Für die meisten Verbleibenden zeigen sich keine relevanten Probleme bezüglich der medikamentösen Versorgung. Auf eine Befragung der Kinder und der Fachärzte wird bezüglich der medikamentösen Versorgung verzichtet.

4.1.4 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 4

Ein weiterer wichtiger Faktor im Gesundheitswesen, manchmal leider einer der wichtigsten, sind die finanziellen Möglichkeiten, eine bestmögliche Therapie zu Erzielen. Seiten der Ärzte zeigt sich, dass 80% der Befragten der Meinung sind, sie Verfügen über ausreichend Ressourcen, um ihre Patienten zufrieden stellend zu behandeln (s.o.). Nun stellt sie die Frage, ob die Familien selbst finanzielle Möglichkeiten haben, sich bzw. ihre Kinder adäquat behandeln zu lassen. Dafür sollte zuerst geklärt werden, ob die Erkrankung überhaupt eine finanzielle Belastung für die Familien darstellt.

Fragestellung 4: Ist die chronische Erkrankung eines Familienmitgliedes eine finanzielle Belastung?

Aus Sicht der betroffenen Erwachsenen:

16 (80,0%) der Befragten (n=20) müssen gelegentlich für ihre Gesundheitsversorgung etwas bezahlen. Allerdings beurteilte niemand der Teilnehmer diese Belastung als extrem hoch oder fand es extrem schwierig, finanzielle Unterstützung zu erhalten. In den meisten Fällen wird die fachärztliche Behandlung direkt durch die Krankenkassen übernommen (80,0%) oder zu einem späteren Zeitpunkt zurückerstattet (10,0%).

Aus Sicht der Eltern:

10 (41,7%) der befragten Eltern (n=23) müssen gelegentlich für die Gesundheitsversorgung ihres Kindes etwas bezahlen. Allerdings beurteilen lediglich zwei der Teilnehmer diese Belastung als extrem hoch und fanden es auch extrem schwierig, finanzielle Unterstützung

zu erhalten. In den meisten Fällen wird die fachärztliche Behandlung direkt durch die Krankenkassen übernommen (66,7%) oder zu einem späteren Zeitpunkt zurückerstattet (33,3%).

Zusammenfassend zeigt sich auch hier, dass sich die befragten Erwachsenen-Gruppen in ihren Aussagen bezüglich der finanziellen Belastung aufgrund der Erkrankung MHE eines Familienmitgliedes kaum unterscheiden. Erfreulicherweise stellt sich heraus, dass der Faktor Geld in der vorliegenden Studie eine untergeordnete Rolle zu spielen scheint. Mängel in der Versorgung sind demnach nicht auf zu hohe finanzielle Anforderungen zurück zu führen. Lediglich bei den befragten Eltern zeigt sich in Ausnahmefällen eine hohe finanzielle Belastung für die Familien.

4.1.5 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 5

Ein Hauptbestandteil der Versorgungsforschung ist die Beschreibung der Mikroebene der Krankenversorgung. Hierunter versteht man u.A. die Betreuung, Pflege, Diagnostik und Nachsorge der Kranken. Dazu zählt zum Einen die Versorgung durch Ärzte, wie schon beschrieben, aber auch nicht-ärztliche Leistungen können eine große Rolle spielen. Ob ein Bedarf an nicht-ärztlichen Leistungen in Bezug auf MHE in der vorliegenden Studie besteht und ob dieser gedeckt ist soll im Folgenden geklärt werden.

Fragestellung 5: Ist aus Sicht der Betroffenen ein nicht gedeckter Bedarf an nicht-ärztlichen Leistungen vorhanden?

Aus Sicht der betroffenen Erwachsenen:

Bei der Inanspruchnahme nicht-ärztlicher Leistungen zeigt sich, dass hier die Teilnahme an der *Selbsthilfegruppe* sowie die krankengymnastische Versorgung im Vordergrund stehen. Des Weiteren zeigen sich ein hoher Bedarf an einer Schulung über MHE sowie ein mäßiger Bedarf an Ergotherapie, der jedoch nicht gedeckt ist.

Aus Sicht der Eltern:

Bei der Inanspruchnahme nicht-ärztlicher Leistungen aus Sicht der Eltern an MHE erkrankter Kinder zeigt sich ein dem der betroffenen Erwachsenen nahezu identisches Ergebnis.

Aus Sicht der erkrankten Kinder:

Bei der Befragung der erkrankten Kinder wurde eine offene Frage gestellt. Die Kinder sollten Aussagen darüber treffen, ob es etwas gäbe, was ihnen außer der ärztlichen Versorgung, helfen könnte, mit ihrer Erkrankung besser zurecht zu kommen. Nahezu die Hälfte aller Befragten wünscht sich den Kontakt zu anderen an MHE erkrankten Kindern und ist der Meinung, der Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen könnte ihnen helfen. Leider geben 96,2% (n=26) der Kinder an, sie hätten wenig oder gar keinen Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen. Knapp 20% geben an, krankengymnastische Therapie würde ihnen helfen. 2 Kinder wünschen sich kindgerechtes Infomaterial, und weitere 2 Kinder sehen Hilfe in der Mitgliedschaft der *Selbsthilfegruppe*.

Zusammenfassend lässt sich sagen, dass es nicht gedeckten Bedarf an nicht-ärztlichen Leistungen gibt. Im Vordergrund stehen hierbei sowohl bei den Erwachsenen als auch bei den Kindern Angebote bezüglich der Schulung/ Information über MHE. Auch die ergotherapeutische Versorgung spielt insbesondere für die Erwachsenen eine Rolle. Im Bereich Schulung/ Information findet erneut die SHG ihre Bedeutung. Durch sie wird ein Informationsaustausch unter den Betroffenen ermöglicht. Des Weiteren gibt sie Hilfestellung bei der Beschaffung von z.B. Literatur oder aktuellen Studien über MHE.

Stellungnahme der Fachärzte:

Die Wichtigkeit der *Selbsthilfegruppe (SHG)* zeigt sich auch hier. Der Beitritt in eine Selbsthilfegruppe kann für 100% der befragten Ärzte eine hilfreiche Unterstützung für ihre Patienten sein. Allerdings gaben nur ein Drittel (!) der Ärzte an, über ausreichend Informationen über die Existenz einer Selbsthilfegruppe zu verfügen. Ein weiteres Drittel verfügt über keinerlei Informationen diesbezüglich. Laut eigenen Angaben weisen 60% der befragten Ärzte ihre Patienten und deren Angehörige auf die SHG hin. 80% der Experten sind weiterhin der Meinung, eine psychologische Beratung könne für viele Betroffene sehr sinnvoll sein. Auch dies wird durch den psychologischen Beirat der SHG gedeckt.

4.1.6 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 6

Vorgespräche mit einzelnen Studienteilnehmern im Rahmen der Pilotstudie zeigten, dass die Dauer und Art der Diagnosestellung für viele nicht zufrieden stellend war.

Fragestellung 6: Ist bzw. war aus Sicht der Betroffenen die Art der Diagnosestellung zufrieden stellend?

Aus Sicht der betroffenen Erwachsenen:

Im Durchschnitt vergingen zwischen den ersten Symptomen und der Diagnosestellung 5,5 Jahre ($n=13$; $M=5,52$; $SD=13,51$; $Min=0$; $Max=50$). Diesen Zeitraum empfanden 38,5% als viel zu lang.

Über die Hälfte (57,1%) fühlten sich während dieser Zeit allein gelassen.

Aus Sicht der Eltern:

Im Durchschnitt vergingen zwischen den ersten Symptomen, in den meisten Fällen Exostosen, teilweise begleitet durch Funktionseinschränkungen, und der Diagnosestellung ein knappes Jahr ($n=21$; $M=0,96$; $SD=1,36$; $Min=0$; $Max=5$). Über die Hälfte (54,4%) der Studienteilnehmer empfanden diesen Zeitraum als viel zu lang. 16 (84,2%) der befragten Eltern ($n=19$) fühlten sich während dieser Zeit allein gelassen

Auch bezüglich der Diagnosestellung zeigt sich bei beiden befragten Erwachsenen-Gruppen ein nahezu identisches Bild. Sowohl die betroffenen Erwachsenen als auch die Eltern MHE-erkrankter Kinder empfanden den Zeitraum der Diagnosestellung als zu lang und fühlten sich in dieser Zeit alleine gelassen. Auffällig ist, dass bei den betroffenen Erwachsenen zwischen den ersten Symptomen und der Diagnosestellung im Schnitt 5,5 Jahre vergingen. Die Eltern betroffener Kinder beschreiben diesen Zeitraum mit einem knappen Jahr. Ein Grund hierfür könnte sein, dass sich die Medizin in den letzten Jahren immer weiter entwickelt hat. Allerdings kann auch die Mitentscheidung der Eltern, die immer mehr in der Lage sind, sich z.B. über das Internet zu informieren, eine entscheidende Rolle

spielen. Auch nicht-Mediziner haben heutzutage immer mehr Möglichkeiten, sich über Krankheitsbilder zu informieren und können so entscheidend auf medizinische Abläufe einwirken. Durch shared-decision-making (s.o.) können medizinische Abläufe besonders für den Patienten eine größere Zufriedenheit erreichen.

In der vorliegenden Studie wurden fünf Items bezüglich der Diagnosestellung zu einer Skala zusammengefasst. Itemkodierung: 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Hierbei ergeben sich Mittelwerte von $M=1,91$ für die betroffenen Erwachsenen, $M=2,02$ für die Eltern betroffener Kinder sowie $M=3,03$ für die Vergleichsgruppe (Eltern mit Kindern unterschiedlicher, chronischer Erkrankungen). Chi-Quadrat-Tests ergeben deutliche Signifikanzen unserer untersuchten Erwachsenenengruppen zu der Vergleichsgruppe. Die untersuchten Erwachsenenengruppen sind deutlich unzufriedener bezüglich der Diagnosestellung als die Vergleichsgruppe. Auch dies könnte in der Seltenheit der Erkrankung MHE begründet liegen. Hier lässt sich ein deutlicher Mangel in der Versorgungsstruktur von MHE-Patienten erkennen.

Auf eine Befragung der Kinder diesbezüglich wurde aufgrund des geringen Alters der Kinder zum Zeitpunkt der Diagnosestellung verzichtet.

Stellungnahme der Fachärzte:

Der von den erwachsenen Studienteilnehmern gegebene Eindruck bezüglich der Diagnosestellung wird auch fachärztlicherseits bestätigt. Den Zeitraum zwischen dem ersten Besuch der Patienten bei ihrem Arzt und der Diagnosestellung finden über die Hälfte der Ärzte (53,3%) viel oder etwas zu lang. Über das subjektive Befinden ihrer Patienten während dieser Zeit wurden keine Aussagen getroffen. Es stellten 20% der befragten Ärzte die Erstdiagnose.

4.1.7 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 7

Die Unterstützung MHE-betroffener Kinder durch die Schule bzw. den Kindergarten ist zwar nicht direkt Bestandteil der Versorgungsforschung, soll aber trotzdem in dieser Arbeit ihren Platz finden. Da in dieser Studie auch Kinder befragt wurden, stellte sich heraus, dass diesbezüglich Mängel vorhanden sind, die im Folgenden kurz erwähnt werden.

Fragestellung 7: Ist aus Sicht der Betroffenen die Unterstützung der MHE-betroffenen Kinder durch die Schule bzw. den Kindergarten gegeben?

Zu dieser Fragestellung wurden ausschließlich die betroffenen Kinder gefragt, da es hier im Wesentlichen um den subjektiven Eindruck der Kinder bezüglich der Unterstützung durch die Schule bzw. der Lehrer geht. Hinsichtlich der Situation in der Schule zeigt sich ein eindeutiges Bild: 61,6% der befragten Kinder (n=23) verneinen die Frage, ihre Lehrer würden sich gut mit der Erkrankung MHE auskennen. 76,9% sind außerdem der Meinung, ihre Lehrer hätten wenig bis gar kein Interesse daran. Ob die Lehrer Verständnis dafür hätten, dass die Kinder wegen ihrer Erkrankung mal „nicht so gut drauf“ seien, wird mit „trifft sehr zu“ bis „trifft gar nicht zu“ auf einer Skala von eins bis vier nahezu gleichmäßig verteilt beantwortet. Auf die offene Frage, ob es etwas gäbe, was die Lehrer für die Kinder tun könnten, damit es ihnen in der Schule besser geht, antworten vier Kinder. Hier wird drei Mal darum gebeten, die Lehrer sollten mehr Rücksicht auf sie nehmen. Die Unterstützung durch die Schule weist aus Sicht der Kinder Mängel auf. Um diese Situation zu verbessern, könnte man auch Lehrer und Erzieher auf die

Internetseite der SHG hinweisen, damit diese die Möglichkeit haben sich über das Krankheitsbild zu informieren und eventuell etwas mehr Verständnis für die an MHE erkrankten Kinder aufzubringen.

4.1.8 Zusammenfassung der Ergebnisse zu Fragestellung 8

Medizinische Qualität kann daran gemessen werden, in wie weit die Erwartungen des Patienten erfüllt und dessen Ziele erreicht werden. Vorgespräche mit einzelnen Probanden lassen die Annahme zu, dass die Qualität der Gesundheitsversorgung in Bezug auf MHE Mängel aufweist.

Fragestellung 8: Ist aus Sicht der Betroffenen die Qualität der Gesundheitsversorgung in Bezug auf MHE insgesamt zufrieden stellend?

Die Beschreibung der Qualität der Gesundheitsversorgung wird im Rahmen der Auswertungsroutine (Mittelwertsbildung) zu fünf (betroffene Erwachsene) bzw. sechs (Eltern betroffener Kinder) Skalen zusammengefasst. Itemkodierung: 1="nicht zufrieden", 5="äußerst zufrieden". Ein hoher Wert auf der Skala bedeutet eine große Zufriedenheit.

Aus Sicht der betroffenen Erwachsenen:

Hinsichtlich der Qualität der Gesundheitsversorgung wurden Aussagen bezüglich der erhaltenen Informationen über die Erkrankung MHE während der Diagnosestellung, der Zusammenarbeit des medizinischen Personals untereinander, dem Umgang der Ärzte mit den Patienten, der Zufriedenheit mit der Sprechstunde sowie der Zufriedenheit allgemein getroffen. Hier zeigen sich Mittelwerte zwischen $M=1,91$ und $M=3,02$. Bezüglich

allen Themen sind die Studienteilnehmer also eher unzufrieden. Die letzte Frage bezieht sich auf die Zufriedenheit der Patienten bezüglich ihrer Gesundheitsversorgung im Allgemeinen. Auch hier ist die Itemkodierung: 1="nicht zu frieden", 5="äußerst zufrieden". 20 Studienteilnehmer beantworteten diese Frage (n=20). Hier zeigen sich $M=2,90$; $SD=0,85$. Keiner der Studienteilnehmer ist „äußerst zufrieden“ mit ihrer Gesundheitsversorgung.

Aus Sicht der Eltern:

Aus Sicht der Eltern zeigt sich bezüglich der sechs Skalen (die zusätzliche Skala bezieht sich auf die Schule der Kinder) zur Qualität der Gesundheitsversorgung ein nahezu identisches Bild. Hier ergibt die Befragung Mittelwerte zwischen $M=2,02$ und $M=3,19$. Die Zufriedenheit der Eltern bezüglich der Qualität der Gesundheitsversorgung im Allgemeinen ergibt einen Mittelwert von $M=2,96$; $SD=0,98$.

Beide untersuchten Erwachsenen-Gruppen bieten bezüglich der Qualität der Gesundheitsversorgung auch hier ein nahezu identisches Bild. Die Ergebnisse der Gruppen der betroffenen Erwachsenen und der Eltern wurden auf statistische Unterschiede hin analysiert. Der U-Test zeigt, dass beide Gruppen sich bezüglich allen Skalen nicht signifikant voneinander unterscheiden. Alle Skalenwerte spiegeln eher eine Unzufriedenheit wieder. Im Vergleich zu Ergebnissen aus Untersuchungen mit Eltern von Kindern mit diversen chronischen Erkrankungen (u.A. Asthma, Arthritis, Dermatitis, Diabetes Mellitus Typ 1, zystische Fibrose und Epilepsie) zeigt sich ein anderes Bild. Der Vergleich der Mittelwerte zwischen den Eltern MHE-erkrankter Kinder und der Vergleichsgruppe zeigt für die Skala „Info zur Diagnose“ einen hoch signifikanten Unterschied (s.o.). Auch für die Skala „Umgang der Ärzte“ und für die Skala „Zusammenarbeit Personal“ zeigen sich hoch signifikante bzw.

signifikante Unterschiede. Hier wird deutlich, dass die Qualität der Gesundheitsversorgung von den untersuchten Erwachsenengruppen in der Vorliegenden Studie bezüglich dieser Skalen als sehr viel schlechter wahrgenommen wird als bei der Vergleichsgruppe. Gründe hierfür können abermals die Seltenheit der Erkrankung und die daraus resultierende Unsicherheit der Patienten sein. Eventuell spielt auch der Schweregrad der Erkrankung eine Rolle. Da sich in der vorliegenden Studie die meisten Teilnehmer aus Mitgliedern der Selbsthilfegruppe rekrutieren, kann man annehmen, dass hier die Erkrankung als stark wahrgenommen wird, da der Beitritt in eine Selbsthilfegruppe erfolgte. Der Schweregrad der Erkrankung der Kinder wird von den Eltern in der Vergleichsgruppe in 39 der Fälle (13,1%) als stark, in 99 der Fälle (33,2%) als mittel und in 160 der Fälle (53,7%) als leicht eingestuft.

Für die Skalen „Zufriedenheit Sprechstunde“, „Zufriedenheit allgemein“ und „Unterstützung durch die Schule“ zeigen sich keine signifikanten Unterschiede.

Auf eine Stellungnahme der Kinder wurde aufgrund der Differenziertheit der Fragen und der reduzierten Länge des Fragebogens verzichtet.

Stellungnahme der Fachärzte:

Bei einer Einschätzung der Fachärzte bezüglich der Versorgungssituation von MHE-Erkrankten in Deutschland wurden die Studienteilnehmer gebeten, eine Angabe diesbezüglich in Prozent zu treffen (0%=völlig unzureichend bis 100%=ganz ausgezeichnet). Hier ergibt sich ein Mittelwert von 59,0%. Die Versorgungssituation MHE-Erkrankter in Deutschland wird also von den behandelnden Ärzten besser eingeschätzt, als sie subjektiv von den Patienten wahrgenommen wird.

4.2 Kritische Anmerkungen

Eine mögliche Schwachstelle dieser Studie könnte dem Auswahlverfahren der Probanden der Stichprobe zugrunde liegen. Die überwiegende Anzahl der Studienteilnehmer rekrutiert sich aus der „Bundesselbsthilfevereinigung Multiple kartilaginäre Exostosen (Osteochondrome)“. Es könnte somit also eine Selektivität der Stichprobe vorliegen, die die Repräsentativität einschränkt.

Aufgrund der geringen Prävalenz der MHE-Erkrankung gestaltete sich die Rekrutierung der Teilnehmer mit Exostosen bzw. derer Angehörigen über Kliniken oder öffentliche Anzeigen als schwierig.

Die Befragungen wurden zum Teil in Interviewform telefonisch durchgeführt und zum Teil auf Wunsch der Studienteilnehmer im Selbstauskunftsverfahren. Zum Teil befanden sich die Eltern zum Zeitpunkt der Fragenbeantwortung mit ihren Kindern in einem Raum, von daher kann eine gegenseitige Beeinflussung bei der Beantwortung der Fragen nicht gänzlich ausgeschlossen werden.

Die verwendeten Fragebögen sind sehr umfangreich, insbesondere bei den befragten Kindern wäre es denkbar, dass Abschnitte aufgrund nachlassender Konzentration nicht sehr sorgfältig ausgefüllt wurden.

Bei der Rekrutierung der befragten Ärzte/Experten ist zu berücksichtigen, dass es sich bei allen Teilnehmern um Ärzte handelt, die im Rahmen der Recherche zu dieser Studie von Patienten genannt wurden oder die direkt auf dem Symposium über MHE in Hamburg mit der Doktorandin in Kontakt traten. Das bedeutet, bei allen befragten Ärzten handelt es sich um Experten, die schon in Kontakt zu MHE-Erkrankten standen bzw. sich schon mit der Erkrankung MHE auseinandergesetzt haben. Es wäre denkbar, dass dadurch Ergebnisse in Hinblick auf die Versorgungssituation, beispielsweise bezüglich des Wissens über MHE oder bezüglich der

Dauer der Diagnosestellung, fälschlicherweise besser ausfallen als es tatsächlich der Fall ist.

4.3 Ausblick

Als Ausblick in zukünftige Forschungsarbeit wäre es wünschenswert, eine Längsschnittstudie, insbesondere unter Berücksichtigung der zum Teil noch sehr jungen Kinder anzustreben, um mögliche Änderungen der Versorgungsstruktur MHE-Erkrankter erfassen zu können. Da die Versorgungsforschung und die Qualitätssicherung in Deutschland zwar einen immer größeren Stellenwert einnimmt, dem gegenüber aber immer das Einsparen an Ressourcen steht, wäre eine erneute Datenerfassung in einigen Jahren sinnvoll, um zu erfahren, ob sich die Qualität in der Gesundheitsversorgung in Zukunft sowohl aus Sicht der Patienten als auch aus Sicht der behandelnden Ärzte, verbessert oder sich ggf. noch verschlechtert. Die Rekrutierung einer größeren Stichprobe für zukünftige Forschungsarbeiten wäre wünschenswert, erweist sich jedoch aufgrund der geringen Prävalenz der Erkrankung als schwierig. Vorstellbar in diesem Zusammenhang wäre das Anlegen einer Datenbank mit betroffenen Familien, die eine Bereitschaft zeigen, an wissenschaftlichen Studien teilzunehmen. Eine Möglichkeit für die Gründung und Verwaltung einer solchen wäre die Anbindung an die SHG, welche bereits über eine umfangreiche Adressen-austauschliste verfügt, jedoch aus datenschutzrechtlichen Gründen nicht ohne weiteres für Studienzwecke genutzt werden darf. Berichte wie auch Studien über die MHE-Erkrankung stützen sich aktuell auf sehr kleine Studienkohorten und in vielen Fällen lediglich auf Einzelfallberichte.

Erfolgen weitere Studien mit kleiner Fallzahl, erscheint im Hinblick auf die Interviews eine Transskription sinnvoll, um diese einer analytischen Auswertung zu unterziehen.

Um die in dieser Studie gezeigte Diskrepanz zwischen der aus Patientensicht wahrgenommenen und der aus Arztsicht gebotenen Versorgung zu verringern, wäre eine Einführung von Evaluationsbögen hinsichtlich der Patientenzufriedenheit in Arztpraxen und Krankenhäusern zu überlegen. Solche Evaluationsbögen zur Erfassung der Patientenzufriedenheit gehören in vielen Krankenhäusern heute schon zum Standard, sollten dennoch verstärkt an Bedeutung gewinnen.

Im Hinblick auf die an MHE-erkrankten Kinder zeigt sich, dass sich viele Kinder den Kontakt zu anderen Kindern mit der Selben Erkrankung wünschen. Hier findet wieder die SHG besonderes Augenmerk, die mit ihrer Mitgliedschaft in das Kindernetzwerk einen Schritt in die richtige Richtung macht. „Das "Kindernetzwerk e.V. für kranke und behinderte Kinder und Jugendliche in der Gesellschaft" ist zu einer vernetzenden Institution für betroffene Eltern von Kindern und Jugendlichen mit chronischen Erkrankungen, Entwicklungsverzögerungen und Behinderungen geworden“ (www2.kindernetzwerk.de, 2007). Dies gelingt durch den Aufbau und Einsatz einer deutschlandweit einmaligen Datenbank, die ständig erweitert und aktualisiert wird.

Eine weitere Idee, den Kindern den Kontakt untereinander zu ermöglichen, wären speziell für die Kinder organisierte Kinderfeste. Auch hier könnte die SHG, evtl. mit Unterstützung der Eltern, die Organisation übernehmen.

Des Weiteren sollte die Kommunikation zwischen den behandelnden Ärzten und der SHG verstärkt werden. „Selbsthilfegruppen sind für Haus- wie für Fachärzte unverzichtbare Ansprechpartner. Von der erlebten Kompetenz, die gerade Eltern von chronisch kranken oder behinderten Kindern und Jugendlichen aus dem Alltag mitbringen, können heute alle Mediziner in Praxis und Klinik mit ihrer erlernten Kompetenz profitieren (www2.kindernetzwerk.de, 2007). Dafür ist das bekannter machen der SHG unverzichtbar. Die vorliegende

Untersuchung zeigt, dass viel zu wenig Ärzte über Informationen bzw. die Existenz der SHG verfügen.

Ein weiterer interessanter Aspekt ist, dass durch die Möglichkeiten, besonders über die SHG, sich selbst als Patient oder als Angehöriger über das Krankheitsbild MHE zu informieren, sich der Patient in die Position bringt, aktiv in den Ablauf seines Weges durch das Gesundheitssystem einzuwirken. Er kann besser auf Entscheidungen bezüglich der Therapieplanung Einfluss nehmen, was wiederum eine größere Patientenzufriedenheit mit sich bringen kann. Er gewinnt allerdings auch soweit an Kompetenz, dass er seinen behandelnden Arzt kritischer beurteilen kann. Interessant wäre es, in einer Längsschnittstudie zu evaluieren, inwieweit eine größere Partizipation der Patienten an ihrem Krankheitsgeschehen zu einer größeren Zufriedenheit bezüglich der Versorgungssituation beiträgt.

5 Zusammenfassung

Die multiple hereditäre Exostosenkrankheit (MHE) ist eine autosomal-dominant erbliche Systemerkrankung des Skeletts. Das Vorkommen in der Bevölkerung wird auf ungefähr 1:50.000 geschätzt. Damit ist MHE eine eher seltene Erkrankung. Die Exostosen zählen zu den gutartigen Knochentumoren. Das Ausmaß, die Größe und Anzahl dieser variiert stark von Person zu Person. Man geht davon aus, dass bei nur etwa zwei Drittel aller Betroffenen die Krankheit festgestellt wird. Das Aufsuchen zahlreicher Spezialisten ist häufig von Nöten, und selbst dann wird MHE oft nicht richtig diagnostiziert. Dies zieht eine Unzufriedenheit seitens der Patienten bezüglich der Versorgungssituation mit sich, die in der vorliegenden Studie beschrieben wird. Während eine Vielzahl von organmedizinischen Untersuchungen zur Genetik und Orthopädie bereits vorliegen fehlen wissenschaftlich fundierte Aussagen zur Versorgung MHE-erkrankter Patienten. Insbesondere bezüglich seltener Erkrankungen wie MHE besteht im Bereich der Versorgungsforschung in Deutschland immer noch ein Nachholbedarf. Die vorliegende Arbeit beschreibt die derzeitige Versorgungssituation von MHE-erkrankten Patienten sowohl aus Sicht der Erkrankten selbst, als auch aus Sicht der behandelnden Ärzte. Ziel ist es, eventuelle Mängel bezüglich der Versorgung MHE-Erkrankter aufzudecken. Hierbei findet vor allen die Mikroebene des Versorgungssystems besonderes Augenmerk.

Für die Datenerhebung der gesamten Studie wurde ein zweistufiges Vorgehen gewählt. Im September 2003 erfolgte im Rahmen einer Pilotstudie die explorative Erhebung von Daten weniger Studienteilnehmer. Schwerpunkte aus dieser Erhebung bildeten die Grundlage für die darauf folgende Hauptuntersuchung. Die Daten

wurden im Zeitraum von Mai 2004 bis September 2004 erfasst. Eine enge Zusammenarbeit zwischen der Bundesselbsthilfevereinigung *Multiple Kartilaginäre Exostosen* und der Doktorandin war hierfür unabdingbar. Vorlage für die verwendeten Fragebögen bildete der Fragebogen „disabkids-Fragen zur Versorgung“. Die statistische Auswertung aller Daten aus den Interviews erfolgte mittels des Programmpakets SPSS (Statistical Package for the Social Science). Die Auswertung erfolgte vorwiegend deskriptiv nach Häufigkeiten, Mittelwerten und Standardabweichungen. Die inferenzstatistischen Prüfungen der hier untersuchten Personengruppen und der Vergleichsgruppe auf Mittelwertsunterschiede erfolgten in Abhängigkeit vom Skalenniveau mittels chi-Quadrat-Test, Mann-Whitney U-Test oder t-Test.

Zudem wird bei dem Vergleich der Daten mit Referenzwerten aus der Vergleichsgruppe die standardisierte Effektstärke (SES) ermittelt ($[M_k - M_n] / SD_n$). Werte bis 0,20 werden als kleine Effekte interpretiert, Werte bis 0,40 werden als mittlere Effekte bewertet, und Werte ab 0,80 als große Effekte. P-Werte unter ,05 werden als signifikant betrachtet.

Es nahmen 85 Personen im Alter zwischen 5 und 65 Jahren an der Untersuchung teil. Zu Untersuchungszwecken wurden die Teilnehmer in vier Kategorien eingeteilt. 20 (23,5%) befinden sich in der Kategorie „betroffene Erwachsene“, 24 (28,2%) in der Kategorie „Eltern“, 26 (30,6%) in der Kategorie „Kinder“ und 15 (17,6%) sind der Kategorie „Experten“ zugeordnet. Die Ergebnisse zeigen, dass sich die untersuchten Erwachsenen-Gruppen, betroffene Erwachsene und Eltern betroffener Kinder, bezüglich aller Fragestellungen kaum unterscheiden. Die Hausärztliche Versorgung wird als eher zufrieden stellend beurteilt. Die Versorgung durch den Spezialisten wird hingegen als eher unzureichend beschrieben. Besonders bezüglich der Diagnosestellung und der fachärztlichen

Betreuung ist die Unzufriedenheit sehr groß. Diesbezüglich unterscheiden sich die hier untersuchten Gruppen signifikant von der Vergleichsgruppe, Eltern chronisch kranker Kinder mit häufigeren Erkrankungen wie z.B. Diabetes oder Asthma. Der Unzufriedenheit der Erwachsenen-Gruppen bezüglich der fachärztlichen Versorgung gegenüber steht auch die Meinung der Spezialisten selbst. Diese sind zum überwiegenden Teil der Meinung, sie verfügen über ausreichendes Wissen und über ausreichend Ressourcen, ihre Patienten zufriedenstellend zu behandeln. Hier zeigt sich eine deutliche Diskrepanz bezüglich der Versorgungssituation aus Arztsicht und der aus Patientensicht wahrgenommenen Versorgungssituation.

Die medikamentöse Therapie scheint bei der Exostosenkrankheit eine untergeordnete Rolle zu spielen. Nur wenige Studienteilnehmer nehmen bzw. nahmen Medikamente wegen ihrer Erkrankung ein. Eine Unzufriedenheit diesbezüglich lässt sich nicht feststellen.

Erfreulicherweise scheint auch die finanzielle Belastung für die Familien nur in Einzelfällen eine Rolle zu spielen. Mängel in der Versorgung lassen sich nicht darauf zurückzuführen.

Einer der wichtigsten Aspekte dieser Untersuchung scheint die Wichtigkeit der Bundesselbsthilfegruppe (SHG) zu sein. In dieser Arbeit wird deutlich, dass es wahrscheinlich aufgrund der Seltenheit der Erkrankung Mängel in der Versorgungssituation von MHE-Erkrankten gibt. Die SHG ermöglicht den Patienten, sich eigenständig über ihr Krankheitsbild zu informieren und untereinander auszutauschen. Dies führt zu einer verstärkten Partizipation am Krankheitsgeschehen und an den Behandlungsabläufen, was wiederum eine größere Patientenzufriedenheit mit sich bringt. Leider ist vielen behandelnden Ärzten die Existenz der SHG nicht bekannt.

6 Literaturverzeichnis

Albers, A. (2007). Gesundheitsbezogene Lebensqualität, Coping und Soziale Unterstützung bei Patienten mit Multiplen Hereditären Exostosen (MHE) und ihren Angehörigen. Med. Dissertation. Universität Hamburg

ÄZQ, Ärztliche Zentralstelle Qualitätssicherung (2000). Medizinische Über-, Unter- und Fehlversorgung in Deutschland. Stellungnahme zur Anfrage des Sachverständigenrates für die Konzertierte Aktion im Gesundheitswesen. Köln

Bader, B., Grill, F. (2000). Die Ulnarverlängerung beim Osteochondrom (multiple kartilaginäre Exostosen) am Unterarm, in: J Handchir Mikrochir Plast Chir, 32: 321-327

Badura, B., Schaeffer, D., Troschke v., J. (2001). Versorgungsforschung in Deutschland – Fragestellungen und Förderbedarf. in: Z.f.Gesundheitswiss.9 Jg;H4

Barros, F., Oliveira, R., Gonzales, C. (1995). Hereditary multiple exostoses and cervical ventral tubercle causing dysphagia: A case report. in: Spine, 20: 1640-1642

Baudisch, W. (1998). Die Bedeutung der Prozessorientierung in der Neugestaltung des Gesundheitswesens. in: Merke K (Hrsg) Umbau und Abbau im Gesundheitswesen?, Springer-Verlag Berlin

Bauer, M., Bach, A. (1999). Qualitätsmanagement im Krankenhaus: Schwerpunkt Anästhesiologie. Anästhesiologische Intensivmedizin, 40:627-637

Bauer, M. (2003). Versorgungsforschung im stationären Sektor. Dissertation zur Erlangung des Doctor Public Health. Universität Bielefeld

Bundesärztekammer (1997). Leitfaden Qualitätsmanagement im deutschen Krankenhaus, Zuckschwerdt - Verlag München

Castells, L., Comas, P., Gonzalez, A., Vargas, V., Guardia, J., Gifre, L. (1993). Case report: heamothorax in hereditary multiple exostosis, in: BRIT J RADIOL, 66: 269-270

Crombie, I., Davies, H. (1997) Research in health care. Design, Conduct and Interpretation of Health Services Research, Wiley-Verlag Chichester

Deck, R., Röckelein, E. (1999). Zur Erhebung soziodemographischer und sozialmedizinischer Indikatoren in den rehabilitationswissenschaftlichen Forschungsverbänden. DRV-Schriften, 16: 84-96

Ehrenfried, A. (1917). Hereditary deforming chondrodysplasia: More cases, in: AM J ORTHOP, 15: 463-478

Ergun, R., Okten, A., Beskonakli, E., Akdemir, G., Taskin, Y. (1997). Cervical laminar exostosis in multiple hereditary osteochondromatosis: anterior stabilization and fusion technique for preventing instability, in: EUR SPINE J, 6: 267-269

Faller, H. (2003). Shared decision making: Ein Ansatz zur Stärkung der Partizipation des Patienten in der Rehabilitation. in: Rehabilitation, 42: 129-135

Hadley, J. (2000). Better Health Care decisions – fulfilling the promise of Health Services Research. in: Health Service Research, 35: 175-186

Hennekam, R. (1991). Hereditary multiple exostoses, in: MED GENET, 28: 262-266

Heuer, B., Heuer, G. (2002). Multiple Kartilaginäre Exostosen (Osteochondrome). in: Kinderärztliche Praxis, 4: 295.299

Heuer, G. (2003). Multiple Kartilaginäre Exostosen, Symposium über Multiple Hereditäre Exostosen, Hamburg

Hurrelmann, K., Laaser, U. (1998). Handbuch Gesundheitswissenschaften, Juventa-Verlag Weinheim

Jaffé, H. (1943). Hereditary multiple exostoses, in: ANN PATH, 36: 335-345

Khurana, J., Abdul-Karim, F., Bovée, J. (2002). Osteochondroma, in: World Health Organization classification of tumours. Pathology and genetics of tumours of soft tissue and bone., S. 234-236.

Koch, U. (2003). Vortrag zum Kongress für Versorgungsforschung Hamburg

Laaser, U., Schwalbe, A. (2000). Das Gesundheitswesen in Deutschland: von der Ausgaben- zur Ergebnisorientierung, 5.Gesundheitswissenschaftliches Kolloquium Berlin

Langer, L., Krassikoff, N., Laxova, R., Scheer-Williams, M., Lutter, L., Gorlin, R., Jennings, C. (1984). The trichorhino-phalangeal syndrome with exostoses (or Langer-Giedion syndrome), in: AM J MED GENET, 19: 81-111

Le Merrer, M., Legeai Mallet, L., Jeannin, P., Horsthemeke, B., Schinzel, A., Plauchu, H., Tutain, A., Achard, F., Munnich, A., Maroteaux, P. (1994). A gene for hereditary multiple exostoses maps to chromosome 19p, in: HUM MOL GENET, 3: 717-722

Leube, B. (2003). Genetische Grundlagen, Symposium über Multiple Hereditäre Exostosen Hamburg

Michelson, R., Wynn, S. (2001). The Emotional Implications of Chronic Illness. On MHE Patients and their Families, in: The MHE Coalition Newsletter, 5: 5-6

Parsch, K. (2003). Multiple hereditäre Exostosen, Symposium über Multiple Hereditäre Exostosen Hamburg.

Peterson, H. A. (1989). Multiple hereditary osteochondroma, in: CLIN ORTHOP, 239: 222-230

Pfaff, H. (2003). Gesundheitsversorgung und Disease Management, Hans Huber-Verlag Bern Göttingen Toronto Seattle

Rieser, S. (2005). Versorgungsforschung; das machen die Kassen, in: Deutsches Ärzteblatt, 20:B1180

Salomon, L. (1963). Hereditary multiple exostosis, in: J BONE JOINT SURG, 45-B: 292-304

Schmidt, S. *, Thyen, U., Chaplin, J., Mueller-Godeffroy, E. and the European Disabkids group (in Druck). Development of a child health care questionnaire on satisfaction, utilization and needs (CHC-SUN): Results from a European pilot study, Universität Hamburg

Shapiro, F., Holtrop, M., Glimcher, M. (1979). Hereditary multiple exostoses, in: J BONE JOINT SURG, 61-A: 815-824

Stieber, J. R., Pierz, K. A., Dormans, J. P. (2001). Hereditary Multiple Exostosis: A Current Understanding of Clinical and Genetic Advances, in: UPOJ, 14: 39-48

SVR, Sachverständigenrat für die Konzertierte Aktion im Gesundheitswesen (2002). Gutachten 2000/2001 – Bedarfsgerechtigkeit und Wirtschaftlichkeit, Band 3.1, Baden-Baden

US Joint Commission (2004). US Joint Commission on the Accreditation of Healthcare Organizations, <http://www.jcaho.org/>, 10.10.2004

Virchow, R. (1876). Über die Entstehung des Enchondroms und seine Beziehungen zur Enchondrosis und Exostosis cartilaginea, Berlin

Vortkamp, A., Lee, K., Lanske, B., Segre, G., Kronenberg, H., Tabin, C. (1996). Regulation of rate of cartilage differentiation by Indian hedgehog and PTH-related protein, in: SCIENCE, 273: 613-622

WHO, World Health Organization (2002). International classification of functioning, disability and health, Genf

Wicklund, C. L., Pauli, R. M., Johnston, D., Hecht, J. T. (1995). Natural history study of hereditary multiple exostoses, in: AM J MED GENET, 55: 43-46

Woods, A., Couchman, J. R. (1998). Syndecans: synergistic activators of cell adhesions, in: TRENDS CELL BIOL, 8: 189-192

Wuyts, W., Van Hul, W. (2000). Molecular basis of multiple exostoses: Mutations in the EXT1 and EXT2 genes, in: HUM MUTAT, 15: 220-227

ZVFK, (2003). Definition der Versorgungsforschung, Zentrum für Versorgungsforschung, Köln, <http://www.zvfk.de>, 08.10.2003

ZVFK, (2007). Definition der Versorgungsforschung, Zentrum für Versorgungsforschung, Köln, <http://www.zvfk.de>, 25.05.2007

ZVFK, (2007). Ziele und Aufgaben der Versorgungsforschung, Zentrum für Versorgungsforschung, Köln, <http://www.zvfk.de>, 24.05.2007

7 Abbildungsverzeichnis

Abb. 1:	Prädilektionsstellen der Exostosen.....	3
Abb. 2:	Das systemtheoretische Modell des Versorgungssystems.....	19
Abb. 3:	Altersverteilung der Kategorie „Betroffene Erwachsene“	47
Abb. 4:	Anzahl der Exostosen „Betroffene Erwachsene“	48
Abb. 5:	Lokalisation der Exostosen „Betroffene Erwachsene“	49
Abb. 6:	Art der professionellen Behandlung in % „Betroffene Erwachsene“	50
Abb. 7:	Altersverteilung der Kategorie „Eltern betroffener Kinder“	59
Abb. 8:	Anzahl der Exostosen der Kinder.....	60
Abb. 9:	Lokalisationen der Exostosen der Kinder.....	60
Abb. 10:	Altersverteilung der Kategorie „Kinder“	72
Abb. 11:	Dauer der Ausübung der beruflichen Tätigkeit.....	76
Abb. 12:	Verteilung der Anzahl der behandelten Patienten.....	82
Abb. 13:	Versorgungssituation in Deutschland.....	83

8 Tabellenverzeichnis

Tab. 1:	Angaben zum Wissenstand und Informationswunsch.....	29
Tab. 2:	Vorgabe der Instrumente in Bezug auf einzelne Kategorien.....	43
Tab. 3:	Beschreibung der Gesamtstichprobe.....	45
Tab. 4:	Soziodemographische Merkmale der Kategorie „Betroffene Erwachsene“.....	46
Tab. 5:	Bedarf und Inanspruchnahme verschiedener nicht-ärztlicher Leistungen, Kategorie „betroffene Erwachsene“.....	52
Tab. 6:	Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung Kategorie „betroffene Erwachsene“.....	54
Tab. 7:	Soziodemographische Merkmale der Kategorie „Eltern“.....	57
Tab. 8:	Bedarf und Inanspruchnahme verschiedener nicht-ärztlicher Leistungen, Kategorie „Eltern“.....	63
Tab. 9:	Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung...	64
Tab. 10:	fachärztliche Versorgung; Häufigkeiten in Prozent....	68
Tab. 11:	Vergleich der Erwachsenenengruppen zur Erfassung der Qualität der Gesundheitsversorgung.....	69
Tab. 12:	Soziodemographische Merkmale der Kategorie „Betroffene Kinder“.....	71
Tab. 13:	Verhältnis der Kinder zu ihrem Arzt.....	73
Tab. 14:	gewünschte Hilfe im Umgang mit den Exostosen.....	74
Tab. 15:	Darstellung der beruflichen Position.....	77
Tab. 16:	Beurteilung von Aussagen über die Versorgung von MHE-Patienten aus Sicht der behandelnden Ärzte.....	78

9 Anlagenverzeichnis und Anlagen

Anlage A:	Teilnehmerinformation
Anlage B:	Kontaktbogen
Anlage C:	Fragebogen Vorstudie
Anlage D:	Antrag Ethikkommission
Anlage E:	Aufklärung
Anlage F:	Einverständnis
Anlage G:	Anschreiben Faxbefragung
Anlage H:	Fragebogen B „betroffene Erwachsene“
Anlage I:	Fragebogen EL „Eltern betroffener Kinder“
Anlage J:	Fragebogen K „betroffene Kinder“
Anlage K:	Faxbefragung „Experten“

Anlage A Teilnehmerinformation

Teilnehmerinformation

Liebe Studienteilnehmerin, lieber Studienteilnehmer,

das Institut und Poliklinik für Medizinische Psychologie führt eine Untersuchung zur Lebens- und Versorgungsqualität bei Menschen mit Multiplen Hereditären Exostosen (MHE) und ihren Angehörigen durch.

Was ist das Ziel der Untersuchung?

Hintergrund der Arbeit ist das Ziel, das Wissen um die Erkrankung und ihre Folgen zu mehren. Während zur medizinischen Seite (Genetik, Orthopädie) mittlerweile viele Untersuchungen vorliegen, fehlen psychosoziale Aspekte in der Literatur gänzlich. Dabei ist die Frage des Umgangs mit MHE Bestandteil des Alltags. Unser Ziel ist, den Status quo der Versorgungslage und Lebensqualität zu beschreiben und somit für Laien und Fachkräfte zugänglich zu machen. Hierzu werden eventuelle psychosoziale Beeinträchtigungen sowie Einschränkungen in der subjektiven Gesundheit (Lebensqualität) MHE-Erkrankter und derer Angehörigen beschrieben und erfasst und in ihrem Ausmaß mit der Allgemeinbevölkerung verglichen. Darüber hinaus wird die Versorgungssituation unter Alltagsbedingungen dokumentiert und evaluiert (bewertet).

Wie sieht der Ablauf aus?

Sie erhalten von uns ein Anschreiben mit der Einverständniserklärung zu dieser Studie. Falls in Ihrer Familie auch ein Kind unter 18 Jahren befragt wird, unterzeichnen Sie bitte alle den Vordruck. Diesen können Sie Entgelt frei zurück schicken. Sobald dieser bei uns eingetroffen ist, vereinbaren wir mit Ihnen separat einen Termin für ein etwa 1 stündiges Telefoninterview. Die Kinderinterviews sind mit etwa 20 Minuten entsprechend kürzer!!

Es werden Angabe zu Ihrer Person (z.B. Alter, Geschlecht), zu Ihrer Versorgung (z.B. „Fühlten Sie sich von Ihrem Arzt ausreichend informiert?“) und zu Ihrer Lebensqualität, d.h. ihrer subjektiven Gesundheitsvorstellung (z.B. „Wie ist ihr Gesundheitszustand zur Zeit?“), erhoben.

Was geschieht mit Ihren Angaben?

Die Teilnahme an der Studie ist grundsätzlich **freiwillig**. Selbstverständlich entstehen Ihnen **keinerlei Nachteile**, wenn Sie die Teilnahme ablehnen oder das Interview abbrechen. Abgebrochene Interviews gehen nicht mit in die Datenauswertung ein.

Die Befragung ist **nicht anonym**, da personenbezogenen Daten (z.B. Name) erhoben werden. Die Speicherung Ihrer Angaben in der EDV erfolgt hingegen **anonymisiert**, so dass bei den gruppenspezifischen Auswertungen kein

Rückschluss auf Ihre Person gezogen werden kann. Konkret bedeutet es, dass wir eine Codenummer für jede Person vergeben. Die Codenummer ist auf einem Zettel neben Ihren persönlichen Daten vermerkt. Dieser Zettel wird getrennt verwahrt und **nicht** datentechnisch im PC erfasst. Im Computer werden später der Code und Ihre Antworten auf unsere Fragen abgespeichert. Ein Rückschluss von Ihren Angaben auf Ihre Person ist somit nicht ohne die gesonderte Liste möglich. Die Liste wird nach Abschluss der Datenauswertung vernichtet.

Zu den mit dieser Untersuchung erhobenen Daten haben nur wissenschaftliche Mitarbeiter der Studie Zugang, die der Schweigepflicht unterliegen. Einrichtungspersonal, behandelnde Ärzte oder Krankenkassen erhalten keine Einsicht in Ihre Angaben.

Wir würden uns sehr freuen wenn Sie an der Studie teilnehmen. Bereits an dieser Stelle danken wir Ihnen ganz herzlich für Ihre Mitarbeit!

WICHTIG: Falls Sie **Nachfragen** zu der Studie haben, wenden Sie sich bitte an:

Dr. Carsten Maurischat

Institut und Poliklinik für Medizinische
Psychologie
Martinistr. 52, S 35
20246 Hamburg
Tel.: 040 / 42803-8359
Tel.: 0431 – 79 93 92 69 (p)
c.maurischat@uke.uni-hamburg.de

Prof. Dr. Monika Bullinger

s.o.

Tel.: 040 /42803-2977
bullinger@uke.uni-hamburg.de

Dieses Informationsblatt verbleibt in Ihrem Besitz.

Anlage B: Kontaktbogen



Universitätsklinikum
Hamburg-Eppendorf

Institut und Poliklinik
für Medizinische Psychologie
(Prof. Dr. Dr. Uwe Koch-Gromus,
Direktor)

Zentrum für
Psychosoziale Medizin
Dr. Carsten Maurischat
Tel.: 040 / 42803-8359

Hinweis: Bogen ist für Fensterbriefumschlag geeignet

Per Fax bitte an: 040 / 51 49 13 33

An
Juliane Madee
Brucknerstr. 27
22083 Hamburg

Kontaktbogen

Name: _____

Vorname: _____

Strasse: _____

PLZ/Ort: _____

Tel: _____

(Wann können wir Sie am besten erreichen)

Alter: _____

Sind Sie:

Betroffene/r Angehörige/r

Sonstiges

Vielen Dank, wir melden uns bei Ihnen!

Anlage C: Fragebogen Vorstudie

Codennr.: [] [] []

Vorabbefragung

strukturierter Interviewleitfaden 1. Teil

Liebe Teilnehmerin, lieber Teilnehmer,

Die folgenden Fragen in diesem 1. Teil des Fragebogens beziehen sich auf Angaben zu Ihrer Person, Ihrer familiären und beruflichen Situation. Im 2. Teil werden wir dann genauer auf das Leben mit MHE eingehen.

Die Beantwortung ist selbstverständlich freiwillig. Sie müssen eine Frage nicht beantworten, wenn Sie es nicht wollen. Um später eine optimale Auswertung zu gewährleisten, bitten wir Sie jedoch, die Fragen zu beantworten. Die Daten werden anonymisiert in der EDV gespeichert, eine Codenummer auf einem Zettel separat geführt und archiviert, auf dem der Name und die Daten stehen. Dieser Bogen wird nach der Auswertung vernichtet, so daß kein Bezug nach der Untersuchung zwischen diesen Daten und der Person hergestellt werden kann.

Sind Sie mit der Befragung einverstanden?

ja nein

0.) Datum: _____

1.) Geschlecht: _____

2.) Alter: _____ Jahre

3.) Staatsangehörigkeit: _____

4.) Familienstand: ledig
 verheiratet
 geschieden/ getrennt lebend
 verwitwet

5.) Haben Sie Kinder? keine ja, und zwar _____ (Anzahl)

6.) Leben Sie mit einem festen Partner zusammen? nein ja

7.) Welchen höchsten Schulabschluss haben Sie?

kein Schulabschluss

- Haupt-/ Volksschule
- Realschule/ mittl. Reife
- Fachhochschulreife
- Abitur/ allg. Hochschulreife
- anderer Schulabschluss

8.) Welche Berufsausbildung haben Sie abgeschlossen?

- keine Berufsausbildung
- Lehre (berufliche- betriebliche Ausbildung)
- Fachschule
- Meister-, Technikerschule, Berufs-, Fachakademie
- Universität, Hochschule
- andere Berufsausbildung

welche? _____

9.) Sind Sie zur Zeit erwerbstätig?

- ja**, ganztags
- ja**, mind. halbtags
- ja**, weniger als halbtags
- nein**, Hausfrau/ Hausmann
- nein**, in Ausbildung
- (Lehre, Schule, Studium)
- nein**, Erwerbs-, Berufsunfähigkeitsrente
- nein**, Altersrente
- nein**, arbeitslos, erwerbslos

seit wie vielen Jahren/ Monaten sind Sie

arbeits-, erwerbslos? _____ Jahre+ _____ Monate

nein, sonstiges was? _____

10.) In welcher beruflichen Stellung sind Sie derzeit beschäftigt bzw. (falls nicht mehr

berufstätig) waren Sie zuletzt beschäftigt?

- | | |
|-------------------------------------|--|
| Arbeiter <input type="checkbox"/> | Angestellter <input type="checkbox"/> |
| Beamter/in <input type="checkbox"/> | Selbstständiger/ in <input type="checkbox"/> |
| Sonstiges <input type="checkbox"/> | |

11.) Wie hoch ist das monatliche Nettoeinkommen Ihres Haushaltes insgesamt in etwa?

- unter 1500 Euro 1500 bis 3000 Euro über 3000 Euro

17.) Wie viel Zeit verging zwischen den ersten Symptomen und der Diagnosestellung?

18.) Ich empfand diesen Zeitraum als

- recht kurz
- angemessen
- etwas zu lang
- viel zu lang

19.) Ich fühlte mich während dieser Zeit

- gut betreut
- allein gelassen

20.) Wie zentral ist MHE in Ihrem Leben in Prozent? _____ %

Aktueller Wissensstand über die Krankheit

trifft voll und ganz zu *trifft ein wenig zu* *trifft eher nicht zu* *trifft überhaupt nicht zu*

21.) Ich habe das Gefühl, dass ich über ein ausreichendes Wissen über MHE verfüge.

-

22.) Ich beziehe dieses Wissen

über Ärzte

aus dem Internet

aus Büchern

Sonstiges

Wunsch nach mehr Informationen

trifft voll und ganz zu *trifft ein wenig zu* *trifft eher nicht zu* *trifft überhaupt nicht zu*

23.) Ich interessiere mich auch für somatische

-

Themen wie

was ist MHE

Prognose

OP-Verfahren

Genetik

Sonstiges

24.) Ich interessiere mich auch für psychosoziale Themen wie

Anpassungsstörungen

Hänseleien bei Kindern

Reaktionen der Familie/ Klasse/ Freunde

Gegenwärtige Probleme als Folge der Erkrankung

trifft voll und ganz zu *trifft ein wenig zu* *trifft eher nicht zu* *trifft überhaupt nicht zu*

25.) Ich habe somatische Probleme wie

Schlafstörungen

Müdigkeit

Schmerzen *

Bewegungseinschränkungen *

26.) Ich habe psychosoziale Probleme wie

Ängste

Stigmatisierungserleben

Anpassungsstörungen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Abwesenheit von der Schule/ Schulsport *	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Substanzabusus	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

* nur für Betroffene

Coping

- 27.) Mein Leben hat sich durch MHE verändert.
- 28.) Ich habe Strategien entwickelt, um mit MHE zurechtzukommen.

Soziale Unterstützung

- | | <i>trifft voll
und ganz zu</i> | <i>trifft ein
wenig zu</i> | <i>trifft eher
nicht zu</i> | <i>trifft überhaupt
nicht zu</i> |
|---|------------------------------------|--------------------------------|---------------------------------|--------------------------------------|
| 29.) Ich erhalte Unterstützung von meiner Familie. | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 30.) Ich erhalte Unterstützung von meinen Freunden. | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| 31.) Es gibt auch negative Reaktionen. | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |

Inwiefern?

- 32.) Was denken Sie jetzt? Was ist Ihnen persönlich das wichtigste Anliegen?

VIELEN DANK!!!

Anlage D: Antrag Ethikkommission

Ausführungen für die Ethik- Kommission

Projekt: Versorgungs- und Lebensqualität bei Patienten mit multiplen hereditären Exostosen und ihren Angehörigen“

Anmerkung: Bei diesem Antrag handelt es sich nicht um eine klinische Prüfung, sondern um eine medizinpsychologische Beobachtungsstudie.

1. Persönliche Angaben

- 1.1 Namen und Dienstleistungen des Leiters der Klinischen Prüfung (LKP)
(entspr. § 40 AMG oder § 17 MPG) und seiner Mitarbeiter

Prof. Dr. phil. Dipl.-Psych. Monika Bullinger
Abteilung für Medizinische Psychologie
Universität Hamburg
Martinistr. 52, S 35

20246 Hamburg
Tel.: 040- 42803- 2977
Fax.: 040- 42803- 4940
Email: bullinger@uke.uni-hamburg.de

- 1.2 Nachweise (nur bei erstmaliger Anfrage erforderlich) über die wissenschaftliche

Qualifikation des LKP entsprechend § 40 (1) 4. AMG; § 17 (1) 4. MPG

Antragstellerin: habilitiert und langjährige wissenschaftliche
Tätigkeit
(u.a. internationale Lebensqualitätsforschung)
Professorin für Medizinische Psychologie

Projektleiter: Dr. phil. Dipl.-Psych Carsten Maurischat

Koordinator: Juliane Madee / Andrea Albers, Medizinstudentinnen

- 1.3 Anfragen an die Ethik-Kommission sind gemäß der Gebührenordnung der
Ärztekammer Hamburg gebührenpflichtig:
An welche Person soll dieser Gebührenbescheid gerichtet werden?

Entfällt, da es sich um keine klinische Studie handelt (Universitätsprojekt)

2. Beschreibung und wissenschaftliche Begründung des Projektes, insbesondere:

- 2.1 Erläuterung des Versuchsziels

Gegenstand der Studie ist eine Querschnittsbefragung von Patienten und Angehörigen mit multiplen hereditären Exostosen. Ziel dieser Untersuchung ist, die derzeitige Lage der Versorgung (medizinische Versorgung, Bedarfsfragen, Beratungsangebote etc.) und eventuelle psychosoziale Beeinträchtigungen, sowie Einschränkungen in der subjektiven Gesundheit (Lebensqualität) MHE-Erkrankter und derer Angehöriger im Vergleich zur Normalbevölkerung zu erfassen und zu beschreiben. Diese Aspekte wurden im Vergleich zur medizinischen Seite der Exostosenkrankheit noch nicht standardisiert beschrieben. Es werden standardisierte psychometrische Verfahren zur Erfassung der psychosozialen Gesundheit eingesetzt (zum Beispiel KINDL, Bullinger et al., SF 36, Bullinger u. Kirchberger).

2.2 Darstellung des bisherigen Wissenstandes

Die Krankheit

Bei „multiplen hereditären Exostosen“ (MHE) handelt es sich um eine seltene vererbte Knochenkrankheit unterschiedlichen Schweregrades und unterschiedlicher Auswirkungen. In der Literatur finden sich verschiedene Synonyme wie „multiple Osteochondrome“, „Multiple kartilaginäre Exostosen“, „Hereditary Multiple Exostoses“, „Bessel-Hagen-Krankheit“, etc. Exostosen können klinische Bedeutung durch Schmerzen, Entstellung oder Bewegungseinschränkungen erlangen. Zudem ist das Leben und der Umgang mit den Exostosen (z.B. Operation gleich oder später) möglicherweise mit psychischen Belastungen, Ängsten und Unsicherheit behaftet. Aufgrund der sehr geringen Prävalenz steht auf Seiten der Experten zudem nicht immer ausreichend Erfahrung und Wissen über die Erkrankung und die optimale Therapie zur Verfügung.

Versorgungsforschung

Die Versorgungsforschung ist ein Forschungsgebiet, das die Kranken- und Gesundheitsversorgung beschreiben, erklären und verbessern will. Sie beschreibt und analysiert den Weg des Patienten durch das Gesundheitssystem mit dem Ziel, in allen Versorgungsbereichen, von der Mikro- bis zur Makroebene, Einflussfaktoren zu identifizieren (Koch 2003). Versorgungsforschung kann definiert werden als eine grundlagen- und problemorientierte, fachübergreifende Forschung, welche die Kranken- und Gesundheitsversorgung und ihre Rahmenbedingungen

- beschreibt
- kausal erklärt und aufbauend darauf
- Versorgungskonzepte entwickelt,
- deren Umsetzung begleitend erforscht und/oder
- unter Alltagsbedingungen evaluiert“ (ZVFK 2003).

Zusammenfassend kann man also sagen, dass die Beschreibung der Versorgungssituation und der Versorgungsprobleme zu den Grundaufgaben

der Versorgungsforschung zählt. Sie ist leider in den Gesundheitswissenschaften wie der Medizin bisher zu stark vernachlässigt worden (ZVFK 2003).

Gesundheitsbezogene Lebensqualität

Die subjektiv erlebte Gesundheit ist unter dem Begriff gesundheitsbezogene Lebensqualität in den letzten 15 Jahren immer intensiver in der Medizin diskutiert worden. Unter gesundheitsbezogener Lebensqualität wird im allgemeinen die Selbstbeurteilung der psychischen, körperlichen und sozialen Komponenten von Wohlbefinden und Funktionsfähigkeit verstanden. Erst seit jüngster Zeit ist ein wachsender Anstieg der Lebensqualitätsforschung auch im Kinderbereich zu verzeichnen.

Durch die Optimierung der Medizin, der damit verbundenen Erhöhung der Lebenserwartung, ist es in der heutigen Gesellschaft zu einem Anstieg chronisch kranker Personen gekommen, die langfristig behandlungsbedürftig sind.

Aufgrund der zunehmenden Bedeutung dieser kontinuierlichen Therapieformen werden neben Morbidität und Mortalität neue Kriterien zur Bewertung von Behandlungsmaßnahmen und dem Lebenshintergrund benötigt, um damit eine präzisere Beschreibung der „Lebenswirklichkeit“ (ICF 2002) chronisch kranker Menschen zu gewinnen.

Dieses ermöglicht die Entscheidung zwischen Therapiealternativen, die Kosten-Nutzen-Abwägung der Behandlung sowie eine Verbesserung der Patientenbetreuung.

- 2.3 a) Ergebnisse der pharmakologisch-toxikologischen Vorprüfungen bei Arzneimittelstudien (§ 40 (1) 5. und 6. A MG)
„entfällt“
b) oder Nachweise über die Sicherheitstechnische Unbedenklichkeit des Medizinproduktes sowie Ergebnisse der biologischen Sicherheitsprüfung (§ 17 (1) 6. und 7. MPG)
„entfällt“
- 2.4 Begründung der Notwendigkeit von Humanversuchen
a) Experimente an gesunden Personen?
b) Heilversuche an Patienten?
„entfällt“
- 2.5 Schilderung der geplanten Versuchsausführung einschließlich der statistischen Auswertung

Versuchsplanung und Methodik

Stichprobe/Datenerhebung

In der Durchführung der Studie gilt es zunächst aufgrund der geringen Prävalenz, möglichst viele MHE-Betroffene und auch die Angehörigen, auf diese Untersuchung aufmerksam zu machen. Das Nutzen von verschiedenen Verteilern sowie die enge Zusammenarbeit mit diversen Experten, wie verschiedenen Ärzten der Uniklinik Hamburg, Düsseldorf und eines Krankenhauses in Paderborn, weiter die Zusammenarbeit mit der Bundesselbsthilfegruppe „Multiple kartilaginäre Exostosen (Osteochondrome)“ ermöglicht die Kontaktaufnahme via eines informativen Anschreibens und eines Kontaktbogens, mit dem sich Interessierte bei den Untersuchern melden können. Zusätzlich finden sich Informationen und ein Hinweis auf die Studie auf den Internetseiten der Selbsthilfegruppe (<http://www.exostosen.de>). Hier haben Betroffene und Angehörige auch die Möglichkeit Kontakt, mittels des von uns hinterlegten Kontaktbogens, aufzunehmen.

Die Teilnehmer der Studie werden im Voraus durch die Untersucher in schriftlicher Form über den genauen Ablauf, die Freiwilligkeit der Teilnahme sowie über die anonyme Behandlung und Codierung Ihrer persönlichen Daten, aufgeklärt. Diese Aufklärung und eine unterschriebene schriftliche Einverständniserklärung stellen eine Voraussetzung für die Teilnahme an der Studie dar.

Design

Die Studie wird in zwei Phasen verlaufen. Phase 1 beinhaltet eine Vorstudie, Phase 2 die eigentliche Hauptstudie.

Vorstudie

Die Vorstudie erfolgt an ca. 10 Teilnehmern (Angehörige und Betroffene) auf der Basis halbstandardisierter Interviewfragebögen. Dieser Fragebogen ist unterteilt in einen allgemeinen, soziodemographischen Teil und einen speziellen Teil, der sich im Wesentlichen mit dem Leben mit MHE beschäftigt. Die ausgewerteten Daten sollen als Grundlage für die Erstellung des Fragebogens für die Hauptstudie dienen. So stützt sich die Studie u.a. auf die individuellen Bedürfnisse und Interessen der Betroffenen.

Hauptstudie

In der zweiten Phase folgt die Hauptstudie, die eine Querschnittsbefragung von etwa 35 erwachsenen Betroffenen, 35 Kindern und deren Angehörigen vorsieht. Der Start der Hauptstudie ist für das Frühjahr 2004 vorgesehen. Die in der Vorstudie erprobte Erhebungsmethode per halbstandardisiertem Interview hat sich bewährt und soll neben der schriftlichen Befragung zum Einsatz kommen. Hierzu werden standardisierte psychometrische Verfahren

zur Erfassung der Versorgungslage sowie der psychosozialen Gesundheit eingesetzt (s. Anlage).

Statistische Auswertung

Die statistische Auswertung aller Daten aus den Interviews der Vorstudie und der Hauptstudie, erfolgt mittels dem Programmpaket SPSS (Statistical Package for the Social Science).

Es werden neben der deskriptiven Statistik inferenz-statistische Methoden zur Testung von Mittelwertsunterschieden (t-Test; U-Test) zum Vergleich der Belastungen mit den jeweiligen Normpopulationen verwendet.

- zur Überprüfung von Unterschieden den t-Test für den Mittelwertsvergleich von zwei Gruppen bei Intervallskalenniveau und Normalverteilung.
- der Mann-Whitney U-Test zur Prüfung auf signifikante Unterschiede der mittleren Ränge von zwei unabhängigen Stichproben. Es handelt sich um ein parameterfreies Verfahren, welches bei Ordinaldaten oder bei nichterfüllten Voraussetzung statt des t-Testes bei unabhängigen Stichproben eingesetzt wird.

2.6 Literaturangaben

Bullinger, M. (1991). Quality of Life – Definition, Conceptualization and Implications: A Methodologists View. *Theoretical Surgery*, 6, 143-148

Bullinger, M., Ravens-Sieberer, U., Siegrist, J. (2000). *Lebensqualitätsforschung aus medizinpsychologischer und –soziologischer Perspektive*. Göttingen: Hogrefe

Faller H (2003) Shared decision making: Ein Ansatz zur Stärkung der Partizipation des Patienten in der Rehabilitation. *42*: 129-135

Glatzer, W., Zapf, W. (1984). *Lebensqualität in der Bundesrepublik Deutschland*. Frankfurt/Main: Campus

Guyatt, G.H., Feeney, D.H., Patrick, D.L. (1993). Measuring Health-Related Quality of Life. *Annals of Internal Medicine*, 118, 622-629

Herschbach, P., Henrich, G. (1991). *Der Fragebogen als methodischer Zugang als Erfassung von „Lebensqualität“ in der Onkologie*: Schwarz, R., Bernhard, J., Flechtner, H., Hüry, C. (Hrsg.), *Lebensqualität in der Onkologie*. Zuckerschwert-Verlag, München, Bern, Wien, San Francisco

Heuer, B., Heuer, G.U. (2002). *Kinderärztliche Praxis*, Nr.4, Kirchheim-Verlag

Killian, R. (1995). Ist Lebensqualität messbar? Probleme der quantitativen und Möglichkeiten der qualitativen Erfassung von Lebensqualität in der Psychiatrie. *Psychiatrische Praxis*, 22,97-101

Koch U (2003) Vortrag zum Kongress für Versorgungsforschung, Hamburg

Leube, B. (2003). Genetik der MHE-Erkrankung.Symposium multiple hereditäre Exostosen, Hamburg 2003

Ludwig, M. (1991). Implizite Therapiebildung in der Lebensqualität. In Bullinger, M.,

Ludwig, M., Steinbüchel v., N. (Hrsg.), Lebensqualität bei kardiovaskulären Erkrankungen (S. 3-12). Stuttgart: Hogrefe

Lydick, E.G., Epstein, R.S. (1993). Interpretation of Quality of Life Changes. Quality of Life Research, 2, 221-226

Najman, J. M., Levine, S. (1981). Evaluating the Impact of Medical Care and Technology on Quality of Life: A Review and Critique. Social Science and Medicine, 15F, 107-115

Parsch, K. (2003).Symposium über multiple hereditäre Exostosen, Hamburg 2003

Pfaff H (2003) Gesundheitsversorgung und Disease Management. Hans Huber, Bern Göttingen Toronto Seattle

Ravens-Sieberer, U., Cieza, A., Bullinger, M. (1999). Lebensqualität aus Patientensicht. Internistische Praxis, 39, 821-830

Spilker, B. (1996). Introduction to the Field of Quality of Life Trials. In B. Spilker (Hrsg.), Quality of Life and Pharmacoeconomics in Clinical Trials (S. 1-10). Philadelphia: Lippincott-Raven

Schuntermann et. Al. (2002). Internationale Klassifikation der Funktionsfähigkeit, Behinderung und Gesundheit (ICF). Deutsches Institut für medizinische Dokumentation und Information

ZVFK- Definition der Versorgungsforschung, Zentrum für Versorgungsforschung Köln (2003) <http://www.zvfk.de>, 08.10.2003

ZVFK- Ziele und Aufgaben der Versorgungsforschung, Zentrum für Versorgungsforschung Köln (2003) <http://www.zvfk.de>, 08.10.2003

2.7 Geplanter Studienzeitraum (Beginn/ Ende)
01. Mai 2003 - 01. September 2005

3. Schilderungen der voraussehbaren Belastungen und Risiken für die Versuchspersonen

3.1 Eingehen auf etwaige Kontraindikationen, Ein- und Ausschlusskriterien

Kontraindikationen sind nicht relevant, da es sich nicht um eine Therapiestudie handelt.

Einschlusskriterien sind:

- MHE-betroffene Kinder (8-18) und deren Eltern
- MHE-betroffene Erwachsene
- Angehörige/ Lebenspartner MHE-Betroffener
- Experten (Orthopäden, Kinderärzte, Spezialisten für MHE)

3.2 Stellungnahme zur Möglichkeit weiterer, derzeit nicht überschaubarer Risiken. Weitere Risiken sind nicht bekannt.

3.3 Abbruchkriterien (individuell)

Jeder Teilnehmer hat die Möglichkeit, zu jedem Zeitpunkt und ohne Konsequenzen von der Teilnahme an der Befragung zurückzutreten.

4. Darlegung der voraussichtlichen Vorteile und der Bedeutung des Versuches für den Menschen

a) in der Heilkunde (namentlich unter Vergleich mit herkömmlichen Methoden)
„entfällt“

b) in der Forschung

Die Versorgungsforschung evaluiert und beschreibt die derzeitige Versorgungssituation unter Alltagsbedingungen. Eine weitere wichtige Funktion der Versorgungsforschung ist die „Brücken-Funktion“. Sie verbindet z.B. klinische Forschung mit Public-Health-Forschung, bringt die drei Ebenen (Mikro, Meso, Makro) in einen Zusammenhang und schlägt eine Brücke zwischen Grundlagenforschung und anwendungsorientierter Forschung (Koch 2003). Auch in der psychosozialen Medizin gewinnt die Versorgungsforschung immer mehr an Bedeutung. Sie zeigt die Prävalenz psychischer Störungen und Inanspruchnahme professioneller Hilfe und schafft strukturelle Voraussetzungen sowie die Sicherung der Qualität des psychotherapeutischen Versorgungssystems (Koch 2003).

Es ist wichtig zu verstehen, dass die Krankheit für jedes Familienmitglied eine andere Belastung darstellen kann, deshalb soll in dieser Studie die Frage nach dem unterschiedlichen Erleben der MHE-Erkrankung innerhalb einer Familie, vor dem Hintergrund, dass Eltern chronisch kranker Kinder als Risikogruppe hinsichtlich der Entwicklung eigener gesundheitlicher und psychosozialer Auffälligkeiten angesehen werden (Kazak 1992; Thompson et al. 1992), untersucht werden.

Während eine Vielzahl von organmedizinischen Untersuchungen zur Genetik und Orthopädie bereits vorliegen, fehlen wissenschaftlich fundierte Aussagen zur Auswirkung der MHE-Erkrankung auf Alltagsaktivitäten und Partizipation (ICF 2002), psychische Belastungen und subjektive Gesundheit (Lebensqualität).

4.1 Bei minderjährigen gesunden Versuchspersonen
(vgl. dazu § 40 (1) 1.-3. und (4) 1.-4. AMG bzw. § 17 (1) 1.-3. und (4) 1.-4. MPG)

- a) spezieller Bezug zu Krankheiten von Minderjährigen?
- b) Individuelle Indikation?
- c) Möglichkeit der Prüfung an Erwachsenen ausgeschlossen?

ad a)

In die Befragung werden Kinder und Jugendliche zwar mit einbezogen, aber nicht als Versuchspersonen im Rahmen einer klinischen Studie. Sie werden gebeten, zu ihrem Erleben und Verhalten per Fragebogen Auskunft zu geben. Bei dem Messinstrument handelt es sich um einen Fragebogen, die in einem Teil speziell Bezug nimmt auf chronische Erkrankungen des Kindes/ Jugendlichen und für diesen Zweck entwickelt wurde.

ad b)

„entfällt“

ad c)

Die Auskunft wird auch von Erwachsenen eingeholt, sind aber nicht als Ersatz für die der Kinder anzusehen.

4.2 Bei Patienten als Versuchspersonen:
Individuelle Indikation?

„entfällt“

5. Güterabwägung zwischen den Nachteilen und Risiken einerseits und dem voraussichtlichen Nutzen andererseits

5.1 Berücksichtigung des Grundsatzes, dass stets die Belange der Versuchspersonen den Vorrang haben müssen.

Belange der Patienten und Ihrer Angehörigen haben grundsätzlich Vorrang .Das Forschungsvorhaben greift nicht in etwaige medizinische Behandlungen ein.

5.2 Beschränkung der Zahl der Versuchspersonen auf das unbedingt notwendige Maß (einschließlich begründeter biometrischer Berechnungen)

Zu dem jetzigen Zeitpunkt kann man von einer Stichprobengröße von 70 MHE- betroffenen Teilnehmern ausgehen. Diese Teilnehmer rekrutieren sich überwiegend aus Mitgliedern der Bundesselbsthilfevereinigung „Multiple kartilaginäre Exostosen (Osteochondrome)“, aber auch aus anderen Studien (Leube 2003).

Zu Untersuchungszwecken wird eine Einteilung in zwei Alterskategorien vorgenommen: 55% der Probanden befinden sich zu dem Zeitpunkt der Erhebung im Alter von 3-19 Jahren. Diese werden in die Kategorie „ Betroffene Kinder“ gezählt. Das durchschnittliche Alter in dieser Kategorie beträgt 9,89 Jahre.

41,66% der Teilnehmer zwischen 20 und 65 Jahren werden der Kategorie „ Betroffene Erwachsene“ zugeordnet. Das Durchschnittsalter beträgt hier 37,29 Jahre.

Außerdem werden die Eltern betroffener Kinder sowie die Lebenspartner betroffener Erwachsener befragt. Zum Thema Versorgung werden zusätzlich Experten zu Rate gezogen, die ihre Sicht der Dinge darstellen sollen.

Die Größe der Stichprobe reicht aus um generalisierbare, explorative Aussagen treffen zu können. Mitttelgroße Mittelwertsunterschiede im Vergleich zur Norm können einseitig mit $\alpha < .05$ und 80%iger Power abgesichert werden.

- 5.3 Bei Versuchen an gesunden Probanden, denen keine therapeutischen Vorteile aus dem Versuch erwachsen, gelten strengere Anforderungen an die Vertretbarkeit des Forschungsvorhabens als bei neuartigen Heilversuchen an Patienten (vgl. die unterschiedlichen Anforderungen in § 40 AMG gegenüber § 41 AMG)

„entfällt“

6. Angaben über den der Aufklärungsgespräche mit den Versuchspersonen

6.1 Bei Patienten:

- a) Diagnoseaufklärung
- b) Alternative Verlaufserklärung (Prognoseaufklärung)
- c) Risikoaufklärung, bezogen auf die Versuchsauswirkungen
- d).Aufklärung über ein angebrachtes Verhalten der Versuchsperson während des Versuches und nach dem Versuch

ad a) und b)

„entfällt“

ad c)

Psychologische Ansprechpartner stehen bei interview-assoziertem Beratungsbedürfnis bereit.

ad d)

In Bezug auf die Ausfüllmodi werden die zu befragenden Personen vorher instruiert. Da es sich um Telefoninterviews handelt, können die Untersucher jederzeit Hilfestellung bieten.

Bei Patienten und Probanden:

Aufklärung über die Aufzeichnung von Krankheitsdaten und deren Weitergabe zur Überprüfung an den Auftraggeber, die zuständige Überwachungsbehörde (gemäß § 67 AMG) oder die zuständige Bundesoberbehörde (§ 40 (1) 2. AMG)

In der Patientenaufklärung und in der Einverständniserklärung (s. Anlage) werden die Patienten darauf hingewiesen, dass ihre Daten anonymisiert und gruppenstatistisch ausgewertet werden. Da es sich nicht um eine Arzneimittelstudie handelt, werden die Daten auch nicht an Auftraggeber, Überwachungsbehörde oder Bundesoberbehörde weitergeleitet.

6.2 Aufklärung über die Widerruflichkeit einer Einwilligung?

Mit der Einverständniserklärung willigen die Probanden bzw. ihre Erziehungsberechtigten in das Interview ein. Diese kann jederzeit ohne Angaben von Gründen zurückgezogen werden. Bereits erhobene Daten werden dann nicht in die Auswertung einbezogen. Nachteil erwachsen daraus für den Probanden nicht.

6.3 Besondere Aufklärung über die Situation?

- a) bei der randomisierten Studie?
- b) beim Blind- und Doppelblindversuch
- c) bei placebo-kontrollierten Studien

a), b) und c)

„entfällt

6.4 Beachtung der Sonderregeln bei Minderjährigen und bei in ihrer Geschäftigkeit beeinträchtigten Patienten (§ 40 (4) 1.-4. und § 41 2.-7. AMG; § 17 (4) 4. und § 182. MPG)

Jüngere Kinder werden nur nach vorliegender Einverständniserklärung ihrer Eltern einbezogen. Ältere Kinder (ab acht Jahren) und Eltern werden selbst nur nach ihrem eigenen schriftlichen Verständnis einbezogen. Kleinere Kinder werden explizit nach ihrem Einverständnis gefragt.

7. Beifügung eines Musters für die schriftlich zu erteilende Aufklärung sowie die Einwilligungserklärung
(vgl. § 40 (2) 2. AMG; § 17 (1) 2. MPG)

s. Anlage

8. Nachweis einer ausreichenden Probandenversicherung

„entfällt“

9. Darlegung der Erfüllung etwaiger sonstiger Voraussetzungen für die Durchführung des Vorhabens
(z.B. § 40 (1) 3., 6., 7. AMG, § 67 (1) AMG)

„entfällt“

10. Maßnahmen bei Veränderung der Risikolage

10.1 Sicherstellung, dass bei Veränderungen der Risikolage während des Versuches die Güterabwägung im Sinne von Ziffer 5. jeweils erneut durchgeführt wird und bei nachteiliger Veränderung der Risikolage auch erneute Aufklärungsgespräche mit den Versuchspersonen stattfinden.

„entfällt“

10.2 Mitteilung der veränderten Abbruchkriterien an die Ethik-Kommission
Sollten sich die Abbruchkriterien ändern, wird die Ethik-Kommission benachrichtigt.

10.3 Mitteilung schwerwiegender oder unerwarteter Ereignisse an die Ethik-Kommission „wird eingehalten“.

Anlage E: Aufklärung



Universitätsklinikum
Hamburg-Eppendorf

Zentrum für Psychosoziale Medizin
Institut und Poliklinik für Medizinische
Psychologie
Prof. Dr. Dr. Uwe Koch-Gromus
Direktor

Martinistraße 52 – S 35
20246 Hamburg
Telefon: (040) 42803-8359
Telefax: (040) 42803-4940
c.maurischat@uke.uni-hamburg.de
www.uke.uni-hamburg.de

Universitätsklinikum Hamburg-Eppendorf Martinistraße 52 20246
Hamburg

An
Familien mit MHE (multiplen
hereditären Exostosen)

28. Juli 2003

Studie: Versorgung- und Lebensqualität bei Patienten mit multiplen
hereditären Exostosen (MHE) und ihren Angehörigen

Sehr geehrte Betroffene und Angehörige,

Multiple hereditäre Exostosen sind biologisch Entwicklungsstörungen des Knochens, welche dem klinischen Erscheinungsbild von Tumoren entsprechen. Es gibt unterschiedliche Namen für MHE wie „Multiple Hereditäre Exostosen“, „Multiple Hereditäre Osteochondrome“, „Multiple Kartilaginäre Exostosen“ etc. Exostosen können klinische Bedeutung durch Schmerzen, Entstellung oder Bewegungseinschränkungen erlangen. Zudem ist das Leben und der Umgang mit den Exostosen (z.B. Operation gleich oder später) möglicherweise mit psychischen Belastungen, Ängsten und Unsicherheit behaftet. Aufgrund der geringen Prävalenz (Erkrankung ist sehr selten) steht auf Seiten der Experten zudem nicht immer ausreichend Erfahrung und Wissen über die Erkrankung und die optimale Therapie sofort zur Verfügung.

Wer sind wir?

Wir sind Medizinstudentinnen der Universität Hamburg, die die Problematik der Lebensqualität und Versorgung von MHE-Patienten und Ihren Angehörigen in einer

Doktorarbeit an der Abteilung für Medizinische Psychologie des Universitätsklinikums Hamburg untersuchen möchten.

Ziel dieser Doktorarbeit ist es, die derzeitige Lage der Versorgung (medizinische Versorgung, Bedarfsfragen, Beratungsangebote etc.) und eventuelle psychosoziale Beeinträchtigung und Einschränkungen in der subjektiven Gesundheit (Lebensqualität) MHE-Erkrankter und derer Angehöriger zu erfassen und zu beschreiben.

Weiterhin möchten wir auch die Versorgungsstruktur untersuchen. Inwieweit ist die Versorgung lückenhaft? Erfolgte die Diagnosestellung zügig? Fühlten/ fühlen Sie sich mit der Krankheit oft allein gelassen? Hätten Sie sich mehr Unterstützung gewünscht?

Unser Anliegen:

Wir würden Sie gerne zu diesem Thema in Form von Fragebögen oder am Telefon (Zeitpunkt: etwa zu Beginn des nächsten Jahres) befragen. Sicherlich haben auch Sie Bedarf, sich zu äußern und uns auf Schwierigkeiten, missliche Umstände o.ä. aufmerksam zu machen.

Kontaktaufnahme:

Für uns geht es bei diesem Anschreiben zunächst um die Auffindung von Familien und die Sammlung von Adressen. Aus Datenschutzgründen müssen Sie uns Ihre Adresse selbst mitteilen, bzw. mit uns in Kontakt treten.

Das heißt: Wenn Sie Ihre Erfahrungen, Sorgen oder Ihre Zuversicht mitteilen möchten und uns bei dieser Studie unterstützen möchten **kontaktieren Sie uns bitte** mittels des beiliegenden Kontaktbogens, den Sie sich hier herunterladen können, oder rufen oder mailen Sie uns einfach an.

Wir freuen uns sehr, Sie kennen zu lernen.

Juliane Madee Andrea Albers Dr. Carsten Maurischat

Kontaktadressen:

Juliane Madee	Tel: 040 / 69 21 27 28	Mobil:	0160 /27 84 948
Andrea Albers	Tel: 040 / 51 49 13 33	Mobil:	0160 /97 35 27 02

Anschrift:

Juliane Madee
Brucknerstr. 27
22083 Hamburg

E-Mail: julemadee@gmx.de
 andreaalbers@gmx.de

Anlage F: Einverständniserklärung

Einverständniserklärung

Herr/ Frau _____ hat mich vollständig über das Wesen und die Bedeutung der geplanten Studie aufgeklärt. Ich hatte Gelegenheit die Teilnehmerinformation genau durchzulesen und ggf. telefonisch Fragen an die Studienbetreuung zu stellen. Ein Exemplar des Merkblattes ist mir zum Verbleib ausgehändigt worden. Ich weiß, dass ich meine Einwilligung jederzeit ohne Angaben von Gründen widerrufen kann, ohne dass mir daraus Nachteile entstehen. Die bis zu diesem Zeitpunkt erhobenen Daten gehen nicht in die Auswertung der Studie ein. **Ich weiß, dass die im Rahmen dieser Studie erhobenen Daten und persönlichen Mitteilungen der Schweigepflicht unterliegen und die personenbezogenen Daten zur Auswertung ausschließlich anonymisiert zusammengeführt werden.** Ich bestätige durch meine Unterschrift, dass ich und ggf. mein Kind bereit sind, an der Studie mitzuwirken. Mit der im Informationsblatt angegebenen Verwendung der Daten von mir und meinem Kind bin ich einverstanden.

Datum: _____

Unterschrift des Studienteilnehmers
bzw. der Sorgeberechtigten*

Unterschrift Kind 1

Unterschrift Kind 2

*im Falle von zwei Sorgeberechtigten, müssen beide einer Studienbeteiligung zustimmen

Anlage G: Anschreiben Faxbefragung



Universitätsklinikum
Hamburg-Eppendorf

Zentrum für Psychosoziale
Medizin
Institut und Poliklinik für
Medizinische Psychologie
Prof. Dr. Dr. Uwe Koch-Gromus
Direktor

Martinistraße 52 – S 35
20246 Hamburg
Telefon: (040) 42803-8359
Telefax: (040) 42803-4940
c.maurischat@uke.uni-hamburg.de
www.uke.uni-hamburg.de

Universitätsklinikum Hamburg-Eppendorf Martinistraße 52 20246 Hamburg

An
Dr. med. M. Mustermann
Musterstr. 10
1000 Musterland

1. August 2008

Befragung zur Versorgung von Patienten mit Multiplen Hereditären Exostosen (MHE)

Sehr geehrter Herr Kollege Dr. med. Mustermann,

das Institut und Poliklinik für Medizinische Psychologie der Universitätsklinik Hamburg führt eine Untersuchung zur Lebens- und Versorgungsqualität bei Menschen mit multiplen Hereditären Exostosen (MHE) und ihren Angehörigen durch. Hintergrund der Arbeit ist das Ziel, das Wissen um die psychosozialen Folgen dieser Erkrankung zu mehren und die Versorgungssituation aus Sicht der Patienten und Behandelnden zu dokumentieren.

Wir sind auf Sie über die Selbsthilfegruppe „Multiple Hereditäre Exostosen“ (<http://www.exostosen.de>) aufmerksam geworden, da Sie dieser Selbsthilfegruppe als Beirat angehören oder aber von Mitgliedern im Rahmen von Behandlungen benannt wurden.

Heute möchten wir Sie bitten, sich an einer kurzen Befragung zu beteiligen und den anhängenden Bogen auszufüllen. Die dortigen Fragen zur Versorgung ähneln im Wesentlichen denen, die auch den betroffenen Familien gestellt wurden. Dies ermöglicht später den direkten Vergleich, wie sich die Versorgungsstruktur sowohl aus Sicht der Patienten als auch aus Sicht der Ärzte darstellt.

Der Aufwand für Sie beträgt etwa zehn Minuten. Alle Angaben werden vertraulich behandelt, anonymisiert gespeichert und nur im Rahmen dieser Studie deskriptiv ausgewertet.

Wir würden uns sehr freuen, wenn Sie uns durch Ihre Teilnahme unterstützen. Bitte schicken Sie den beiliegenden Fragebogen (vier Seiten) per Post oder Fax direkt an Frau Juliane Madee, die als medizinische Doktorandin in dem Projekt arbeitet.

Für weitere Fragen stehe ich ihnen gerne zur Verfügung.

Vielen Dank für Ihr Bemühen und freundliche Grüße,

Ihr Dr. C. Maurischat

Anlage H: Fragebogen „betroffene Erwachsene“

Fragebogen
zur
Versorgung
von Patienten mit
Multiplen Hereditären Exostosen (MHE)
B

Teilstudie MHE, Befragung betroffener Erwachsener

Durchführende Einrichtung:



**Universitätsklinikum
Hamburg-Eppendorf**

**Institut und Poliklinik
für Medizinische Psychologie**
(Prof. Dr. Dr. Uwe Koch-Gromus,
Direktor)

**Zentrum für
Psychosoziale Medizin**

Code-Nr ____ / ____ / ____

Sehr geehrte Teilnehmerin, sehr geehrter Teilnehmer,

Sie haben sich bereit erklärt, an der Untersuchung zum Krankheitsbild MHE teilzunehmen.

Gesundheitsstörungen wie MHE werden häufig als sehr beeinträchtigend erlebt und können sich auf das körperliche und psychische Befinden der betroffenen Personen auswirken. Deswegen ist Ihre Auskunft als Betroffene/ Betroffener besonders wichtig.

Im Rahmen dieser wissenschaftlichen Untersuchung, möchten wir Sie bitten, diesen Fragebogen auszufüllen.

Es geht dabei um Ihre persönliche Einschätzung Ihres Gesundheitszustandes und Ihres Wohlbefindens. Ihre Angaben werden vertraulich behandelt. Der Fragebogen gliedert sich in zwei Teile. Der erste Teil bezieht sich auf Angaben zu Ihrer Person. Im zweiten Teil wird dann genauer auf Ihr Leben mit MHE eingegangen.

Bitte beantworten Sie jede Frage, auch wenn manche Fragen ähnlich formuliert sind. Es gibt keine richtigen oder falschen Antworten, wichtig ist Ihre persönliche Sicht.

1. Teil Angaben zu Ihrer Person

1. Geburtsdatum _____
2. Geschlecht männlich weiblich
3. Staatsangehörigkeit _____
4. Familienstand
- verheiratet
seit _____
 - zusammenlebend
seit _____
 - getrennt
seit _____
 - verwitwet
seit _____
 - ledig
5. Haben Sie Kinder? ja nein
wie viele _____
6. Wie viele Personen leben in Ihrem Haushalt? _____
7. Welchen Schulabschluss haben Sie?
- ohne Abschluss
 - Sonderschulabschluss
 - Hauptschulabschluss
 - Realschulabschluss
 - Fachhochschulreife
 - Abitur
 - Sonstiges _____

8. Welche Ausbildung haben Sie?

- keine Ausbildung
- beruflich/ betrieblich
- beruflich/ schulisch (Handelsschule)
- Abschluss an Fach-, Meister-,
- Techniker- oder Berufsschule
- Fachhochschulabschluss
- Hochschulabschluss

9. Wie ist Ihre derzeitige berufliche Situation?

- Ausbildung
- erwerbstätig
- arbeitslos
- frühberentet, seit _____
- berentet, Pension, seit _____
- Hausfrau/ -mann
- sonstiges

10. Welche berufliche Position haben/ hatten Sie inne?

- angelernter Arbeiter
- Facharbeiter
- Vorarbeiter/ Meister
- Angestellter/ Beamte
- Selbstständiger
- Mithelfender in Familienbetrieb
- Sonstiges

11. Wie hoch ist Ihr monatliches Nettoeinkommen?

- weniger als 1500 Euro
- 1500 bis 3000 Euro
- über 3000 Euro

2. Teil Fragen zu medizinischen Aspekten

1.) Wie viele Exostosen haben Sie? _____

2.) Wo befinden sich die Exostosen

Obere Extremität Anzahl _____

Untere Extremität _____

Thorax (Brustkorb) _____

Sonstiges _____

Wo: _____

3.) Wann bemerkten Sie die ersten Symptome?

4.) Wie äußerten sich die ersten Symptome?

Exostosen

Schmerzen

Funktionseinschränkungen

Sonstiges

5.) Wie viel Zeit verging zwischen den ersten Symptomen und der Diagnosestellung?

6.) Ich empfand diesen Zeitraum als recht kurz

angemessen
 viel zu lang

7.) Ich fühlte mich während dieser Zeit

gut betreut

gelassen

allein

8.) Wie zentral ist MHE in Ihrem Leben in Prozent? _____ %

3. Teil Fragen zur Versorgung

Teil 1 - Gesundheitsdienste

In den folgenden Fragen geht es um Ihre gesundheitliche Versorgung. Wir möchten gern von Ihnen erfahren, welche Behandlung Sie erhalten, ob Sie mit den Leistungen zufrieden sind und ob Sie die Behandlung bekommen, die Sie Ihrer Meinung nach brauchen.

Die folgenden Fragen beziehen sich auf Ihre hausärztliche Betreuung.

		ja	nein	
1.	Haben Sie einen Hausarzt, der sich regelmäßig um Ihre gesundheitlichen Probleme kümmert?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	Falls nein, bitte weiter mit Frage 3

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
2.	Sind Sie mit dem Arzt/ der Ärztin zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf die Behandlung durch den Facharzt oder die Fachärztin, die Spezialisten für Ihre Erkrankung sind.

		ja	nein
3.	Gehen Sie zu einem Facharzt/einer Fachärztin oder einem speziell in MHE ausgebildeten Arzt/ Ärztin?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		ja	nein
4.	Waren Sie in den letzten 12 Monaten bei seinem Spezialisten/seiner Spezialistin in Behandlung?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	gar nicht schwierig
5.	War es in den letzten 12 Monaten schwierig, fachärztliche Hilfe zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufriede	äußerst zufrieden
6.	Sind Sie mit Ihrer fachärztlichen Behandlung zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf Versorgung mit Medikamenten.

		ja	nein	
7.	Haben Sie in den letzten 12 Monaten ärztlich verordnete Medikamente eingenommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	falls nein weiter mit Frage 10 falls ja weiter mit Frage 8

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	gar nicht schwierig
8.	War es schwierig, Verordnungen für die Medikamente zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
9.	Sind Sie mit den verordneten Medikamenten zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		ja	nein
10.	Nahmen Sie in den letzten 12 Monaten Medikamente ein, die nicht vom Arzt verordnet waren?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf die Notfallbehandlung.

		ja	nein	
11.	Haben Sie in den letzten 12 Monaten Notfallbehandlungen für sich in Anspruch genommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	falls nein weiter mit Frage 14 falls ja weiter mit Frage 12

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	gar nicht
12.	War es schwierig, in einem Notfall ärztliche Behandlung für sich zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
13.	Waren Sie mit der Notfallbehandlung zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf Ihre finanzielle Belastung.

		ja	nein
14.	Müssen Sie manchmal für Ihre Gesundheitsversorgung etwas bezahlen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		extrem	stark	mittel	etwas	keine Belastung
15.	Wie hoch ist die finanziellen Belastung durch Ihre chronische Erkrankung?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	gar nicht
16.	Wie schwierig ist es, finanzielle Unterstützung zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

17.	Wie wurde im letzten Jahr Ihre fachärztliche Behandlung finanziert?	<input type="checkbox"/> durch die Krankenversicherung
		<input type="checkbox"/> wir haben die Behandlung selbst bezahlt
		<input type="checkbox"/> wir haben die Behandlung zunächst bezahlt und später erstattet bekommen
		<input type="checkbox"/> Andere:

Die folgenden Fragen beziehen sich auf nicht-ärztliche Leistungen.

Bitte geben Sie an, ob/in welchem Umfang Sie diese Leistungen erhalten haben, ob Sie diese Leistungen Ihrer Meinung nach brauchen oder ob Sie sie nicht benötigen.

18.	Bitte kreuzen Sie in jeder Zeile ein Kästchen an	ja	ja, teilweise	nein, brauchen wir nicht	nein, würden wir aber benötigen
	Krankengymnastik	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Ergotherapie	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Logopädie/Sprachtherapie	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Beratung durch Sozialdienst	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Psychologische Beratung/ Psychotherapie	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Häusliche Krankenpflege	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Gesundheitsdienstleistungen am Arbeitsplatz, z.B.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Schulung (über MHE)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Rehabilitationsmaßnahmen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Kurzzeit-Entlastungspflege	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Selbsthilfegruppen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Ausführliche Telefonberatung durch medizinisches Fachpersonal	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Ausstattung mit medizinischen Geräten (z.B. Blutzuckertest-, Inhalationsgerät)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Ausstattung mit Hilfsmitteln (z.B. Gehhilfen, Schreibhilfen, Schienen, Korsett; Rollstuhl)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hilfe bei der Koordination verschiedener Gesundheitsdienste	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Teil 2: Qualität der Versorgung

Zuerst möchten wir Sie fragen, wie Sie die Diagnosestellung und die Informationen über Ihre Erkrankung beurteilen.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
19.	... mit der Zeitdauer, die für die Diagnosestellung benötigt worden ist?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
20.	... damit, wie auf Ihre Gefühle eingegangen worden ist, als Ihnen die Diagnose mitgeteilt wurde?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
21.	... mit der Information über verschiedene Behandlungsmöglichkeiten?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
22.	... mit der Information über MHE?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
23.	... mit der Information über die Medikamente?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

In den folgenden Fragen geht es um die Zusammenarbeit des medizinischen Teams, häufigen Wechsel des Personals und ähnliche Fragen. Bitte denken Sie an die letzten 12 Monate.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
24.	... mit der Zusammenarbeit des medizinischen Personals untereinander?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
25.	... mit dem Wissen des Arztes über Ihre Krankengeschichte, als Sie zur Sprechstunde/Untersuchung kamen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
26.	... mit den Informationen, die Sie über zusätzliche Hilfsangebote erhalten haben, wie z.B. Selbsthilfegruppen, Kontaktadressen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

In den folgenden Fragen geht es um den Umgang mit Ihnen durch den Spezialisten/ die Spezialistin. Bitte denken Sie an Ihren letzten Besuch in der Klinikambulanz/ Facharztpraxis.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
27.	... damit, wie die Ärzte Ihnen zugehört haben?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
28.	... mit den Bemühungen, die unternommen wurden, damit Sie sich wohl fühlten?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
29.	... damit, wie viel Zeit sich für Sie genommen wurde?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
30.	... mit der Aufmerksamkeit des Arztes Ihnen gegenüber?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

31.	... damit, wie auf Ihre Ansichten eingegangen wurde?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
-----	--	--------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------

Die nächsten Fragen beziehen sich ebenfalls auf die ambulante Sprechstunde der Fachklinik/ Facharztpraxis. Bitte denken Sie an den letzten Besuch.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
32.	... mit der Möglichkeit, die Sie betreuenden Personen in der Klinik/ Facharztpraxis telefonisch zu erreichen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
33.	... mit der Wartezeit in der Klinik/ Facharztpraxis?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
34.	... mit Ihrer Beziehung zu den Ärzten und zum medizinischen Personal?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
35.	... mit der Atmosphäre in der Klinik/ Facharztpraxis?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

In den folgenden Fragen geht es um Ihre Zufriedenheit mit den Ärzten. Bitte denken Sie an Ihren letzten Besuch bei Ihrem Facharzt oder in der Sprechstunde der Klinik.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
36.	... mit dem Fachwissen der Ärzte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
37.	.. mit dem Verhalten der Ärzte (höflich, freundlich, respektvoll) ?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
38.	... damit, wie Ihr Wissen über MHE ernst genommen wurden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

39.	... damit, wie die Ärzte auf Ihre Sorgen eingegangen sind?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
40.	... mit der Fähigkeit der Ärzte, verständlich zu erklären?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
41.	... mit der Zeit, die die Ärzte für Sie hatten?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
42.	... damit, wie Ihre Entscheidungen respektiert wurden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Nun möchten wir Sie noch nach Ihrer allgemeinen Zufriedenheit mit Ihrer Gesundheitsversorgung fragen. Bitte denken Sie an die letzten 12 Monate.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
45.	... mit Ihrer gesundheitlichen Versorgung ganz allgemein?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Wir bedanken uns herzlich bei Ihnen für Ihre Mitarbeit!

Anlage I: Fragebogen EL „Eltern betroffener Kinder“

**Fragebogen
Zur
Versorgung
Von Eltern mit Kindern mit
Multiplen Hereditären Exostosen (MHE)

EL**

Teilstudie MHE, Befragung der Eltern

Abteilung für Medizinische Psychologie, Universität Hamburg

Durchführende Einrichtung:



**Universitätsklinikum
Hamburg-Eppendorf**

**Institut und Poliklinik
für Medizinische Psychologie**
(Prof. Dr. Dr. Uwe Koch-Gromus,
Direktor)

**Zentrum für
Psychosoziale Medizin**

Code-Nr ____/____/____

Fragebogen für Eltern MHE-erkrankter Kinder

Liebe Mutter, lieber Vater,

Wir freuen uns sehr, dass Sie sich die Zeit nehmen, diesen Fragebogen auszufüllen. Es geht darin um die Lebensqualität und Gesundheitsversorgung Ihres Kindes. Wir möchten gerne von Ihnen erfahren, wie Sie diese beurteilen, ob Sie zufrieden sind und ob es Ihrer Meinung nach Versorgungslücken gibt.

Die Fragen in diesem Fragebogen stammen aus Gesprächen mit Eltern von chronisch kranken Kindern.

- Denken Sie beim Beantworten der Fragen bitte an die letzten 12 Monate, wenn es in der Frage nicht anders vermerkt ist.
- Einige Fragen mögen Ihnen ähnlich vorkommen. Das liegt daran, dass dieser Fragebogen noch in der Erprobung ist und wir herausfinden möchte, welche Formulierungen besser geeignet sind.
- Kreuzen Sie die Antwort an, die Ihrer Meinung nach am besten passt.
- Machen Sie bitte nur ein Kreuz pro Zeile.

1. Teil Angaben zu Ihrer Person

1. Geburtsdatum _____
2. Geschlecht männlich weiblich
3. Staatsangehörigkeit _____
4. Familienstand
- verheiratet
seit _____
- zusammenlebend
seit _____
- getrennt
seit _____
- verwitwet
seit _____
- ledig
5. Haben Sie Kinder? ja nein
- wie viele _____
6. Wie viele Personen leben in Ihrem Haushalt? _____
7. Welchen Schulabschluss haben Sie?
- ohne Abschluss
- Sonderschulabschluss
- Hauptschulabschluss
- Realschulabschluss
- Fachhochschulreife
- Abitur
- Sonstiges _____

8. Welche Ausbildung haben Sie?

- keine Ausbildung
- beruflich/ betrieblich
- beruflich/ schulisch (Handelsschule)
- Abschluss an Fach-, Meister-,
- Techniker- oder Berufsschule
- Fachhochschulabschluss
- Hochschulabschluss

9. Wie ist Ihre derzeitige berufliche Situation?

- Ausbildung
- erwerbstätig
- arbeitslos
- frühberentet, seit _____
- berentet, Pension, seit _____
- Hausfrau/ -mann
- sonstiges

10. Welche berufliche Position haben/ hatten Sie inne?

- angelernter Arbeiter
- Facharbeiter
- Vorarbeiter/ Meister
- Angestellter/ Beamte
- Selbstständiger
- Mithelfender in Familienbetrieb
- Sonstiges

11. Wie hoch ist Ihr monatliches Nettoeinkommen?

- weniger als 1500 Euro
- 1500 bis 3000 Euro
- über 3000 Euro

2. Teil
Fragen zu medizinischen Aspekten

1.) Wie viele Exostosen hat Ihr Kind?

2.) Wo befinden sich die Exostosen

Anzahl

Obere Extremität	<input type="checkbox"/>	_____
Untere Extremität	<input type="checkbox"/>	_____
Thorax (Brustkorb)	<input type="checkbox"/>	_____
Sonstiges	<input type="checkbox"/>	_____

Wo:

3.) Wann bemerkten Sie die ersten Symptome?

4.) Wie äußerten sich die ersten Symptome?

Exostosen	<input type="checkbox"/>
Schmerzen	<input type="checkbox"/>
Funktionseinschränkungen	<input type="checkbox"/>
Sonstiges	<input type="checkbox"/>

5.) Wie viel Zeit verging zwischen den ersten Symptomen und der Diagnosestellung?

6.) Ich empfand diesen Zeitraum als

- recht kurz
- angemessen
- viel zu lang

7.) Ich fühlte mich während dieser Zeit

- gut betreut
- allein gelassen

8.) Wie zentral ist MHE in Ihrem Leben in Prozent? _____ %

Fragen zu Ihrer Person:

1.	Wer beantwortete den Fragebogen?	OMutter OVater OStiefmutter/Partnerin des Vaters OStiefvater/Partner der Mutter OAndere Wer? _____

3. Teil
Fragen zur Versorgung

Teil 1 - Gesundheitsdienste

In den folgenden Fragen geht es um die gesundheitliche Versorgung Ihres Kindes. Wir möchten gern von Ihnen erfahren, welche Behandlung Ihr Kind erhält, ob Sie mit den Leistungen zufrieden sind und ob Ihr Kind die Behandlung bekommt, die es Ihrer Meinung nach braucht.

Die folgenden Fragen beziehen sich auf die kinderärztliche oder hausärztliche Betreuung Ihres Kindes.

		ja	nein	
1.	Haben Sie einen Kinderarzt/eine Kinderärztin (oder Hausarzt/ Hausärztin), die/der sich regelmäßig um die gesundheitlichen Probleme Ihres Kindes kümmert?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	Falls nein, bitte weiter mit Frage 3

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufriedenn	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
2.	Sind Sie mit dem Arzt/ der Ärztin zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf die Behandlung durch den Facharzt oder die Fachärztin, die Spezialisten für die Erkrankung Ihres Kindes sind.

		ja	nein
3.	Gehen Sie mit Ihrem Kind zu einem Facharzt/einer Fachärztin oder einem speziell in der Erkrankung Ihres Kindes ausgebildeten Arzt/ Ärztin?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		ja	nein
4.	War Ihr Kind in den letzten 12 Monaten bei seinem Spezialisten/seiner Spezialistin in Behandlung?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwieri	gar nicht schwieri
5.	War es in den letzten 12 Monaten schwierig, fachärztliche Hilfe für Ihr Kind zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
6.	Sind Sie mit der fachärztlichen Behandlung Ihres Kindes zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf Versorgung mit Medikamenten.

		ja	nein	
7.	Hat Ihr Kind in den letzten 12 Monaten ärztlich verordnete Medikamente eingenommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	falls nein weiter mit Frage 10 falls ja weiter mit Frage 8

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	gar nicht schwierig
8.	War es schwierig, Verordnungen für die Medikamente zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
9.	Sind Sie mit den verordneten Medikamenten Ihres Kindes zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		ja	nein
10.	Nahm Ihr Kind in den letzten 12 Monaten Medikamente ein, die nicht vom Arzt verordnet waren?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf die Notfallbehandlung.

		ja	nein	
11.	Haben Sie in den letzten 12 Monaten Notfallbehandlungen für Ihr Kind in Anspruch genommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	falls nein weiter mit Frage 14 falls ja weiter mit Frage 12

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	gar nicht schwierig
12.	War es schwierig, in einem Notfall ärztliche Behandlung für Ihr Kind zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
13.	Waren Sie mit der Notfallbehandlung zufrieden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die folgenden Fragen beziehen sich auf Ihre finanzielle Belastung.

		ja	nein
14.	Müssen Sie manchmal für die Gesundheitsversorgung Ihres Kindes etwas bezahlen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		extrem	stark	mittel	etwas	keine Belastu
15.	Wie hoch ist die finanziellen Belastung durch die chronische Erkrankung Ihres Kindes?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

		extrem schwierig	sehr schwierig	schwierig	etwas schwierig	gar nicht
16.	Wie schwierig ist es, finanzielle Unterstützung zu bekommen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

17.	Wie wurde im letzten Jahr die fachärztliche Behandlung Ihres Kindes finanziert?	<input type="checkbox"/> durch die Krankenversicherung
		<input type="checkbox"/> wir haben die Behandlung selbst bezahlt
		<input type="checkbox"/> wir haben die Behandlung zunächst bezahlt und später erstattet bekommen
		<input type="checkbox"/> Andere:

Die folgenden Fragen beziehen sich auf nicht-ärztliche Leistungen.

Bitte geben Sie an, ob/in welchem Umfang Sie diese Leistungen erhalten haben, ob Ihr Kind diese Leistungen Ihrer Meinung nach braucht oder ob es sie nicht benötigt.

18.	Bitte kreuzen Sie in jeder Zeile ein Kästchen an	ja	ja, teilweise	nein, brauchen wir nicht	nein, würden wir aber benötigen
	Krankengymnastik	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Ergotherapie	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Logopädie/Sprachtherapie	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Beratung durch Sozialdienst	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Psychologische Beratung/ Psychotherapie	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Häusliche Krankenpflege	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Gesundheitsdienstleistungen in der Schule, z.B.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Schulung (über die chronische Erkrankung Ihres Kindes)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Rehabilitationsmaßnahmen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Kurzzeit-Entlastungspflege	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Selbsthilfegruppen	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Ausführliche Telefonberatung durch medizinisches Fachpersonal	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Ausstattung mit medizinischen Geräten (z.B. Blutzuckertest-, Inhalationsgerät)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Ausstattung mit Hilfsmitteln (z.B. Gehhilfen, Schreibhilfen, Schienen, Korsett; Rollstuhl)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Hilfe bei der Koordination verschiedener Gesundheitsdienste	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Teil 2: Qualität der Versorgung

Zuerst möchten wir Sie fragen, wie Sie die Diagnosestellung und die Informationen über die Erkrankung Ihres Kindes beurteilen.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
19.	... mit der Zeitdauer, die für die Diagnosestellung benötigt worden ist?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
20.	... damit, wie auf Ihre Gefühle eingegangen worden ist, als Ihnen die Diagnose mitgeteilt wurde?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
21.	... mit der Information über verschiedene Behandlungsmöglichkeiten?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
22.	... mit der Information über die Erkrankung Ihres Kindes?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
23.	... mit der Information über die Medikamente?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

In den folgenden Fragen geht es um die Zusammenarbeit des medizinischen Teams, häufigen Wechsel des Personals und ähnliche Fragen.
Bitte denken Sie an die letzten 12 Monate.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
24.	... mit der Zusammenarbeit des medizinischen Personals untereinander?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
25.	... mit dem Wissen des Arztes über die Krankengeschichte Ihres Kindes, als Sie zur Sprechstunde/Untersuchung kamen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

26.	... mit den Informationen, die Sie über zusätzliche Hilfsangebote erhalten haben, wie z.B. Selbsthilfegruppen, Kontaktadressen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
-----	---	--------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------	--------------------------

In den folgenden Fragen geht es um den Umgang mit ihrem Kind durch den Spezialisten/ die Spezialistin für die Erkrankung Ihres Kindes. Bitte denken Sie an Ihren letzten Besuch in der Klinikambulanz/ Facharztpraxis.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
27.	... damit, wie die Ärzte Ihrem Kind zugehört haben?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
28.	... mit den Bemühungen, die unternommen wurden, damit ihr Kind sich wohl fühlt?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
29.	... mit den Möglichkeiten für Kinder in den Warteräumen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
30.	... mit der Aufmerksamkeit des Arztes Ihrem Kind gegenüber?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
31.	... damit, wie auf die Ansichten Ihres Kindes eingegangen wurde?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Die nächsten Fragen beziehen sich ebenfalls auf die ambulante Sprechstunde der Fachklinik/ Facharztpraxis. Bitte denken Sie an den letzten Besuch.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
32.	... mit der Möglichkeit, die Sie betreuenden Personen in der Klinik/ Facharztpraxis telefonisch zu erreichen?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
33.	... mit der Wartezeit in der Klinik/ Facharztpraxis?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
34.	... mit Ihrer Beziehung zu den Ärzten und zum medizinischen Personal?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
35.	... mit der Atmosphäre in der Klinik/ Facharztpraxis?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

In den folgenden Fragen geht es um Ihre Zufriedenheit mit den Ärzten. Bitte denken Sie an Ihren letzten Besuch bei Ihrem Facharzt oder in der Sprechstunde der Klinik.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
36.	... mit dem Fachwissen der Ärzte	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
37.	.. mit dem Verhalten der Ärzte (höflich, freundlich, respektvoll) ?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
38.	... damit, wie Ihre Fähigkeiten als Eltern ernst genommen wurden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
39.	... damit, wie die Ärzte auf Ihre Sorgen eingegangen sind?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
40.	... mit der Fähigkeit der Ärzte, verständlich zu erklären?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

41.	... mit der Zeit, die die Ärzte für Sie und Ihr Kind hatten?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
42.	... damit, wie Ihre Entscheidungen respektiert wurden?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

In den folgenden Fragen geht es darum, wieviel Verständnis und Unterstützung Ihr Kind in der Schule und im Kindergarten erfährt. Bitte denken Sie an die letzten 12 Monate.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
43.	... mit dem Wissen der Lehrer/innen oder Erzieher/innen über die Erkrankung Ihres Kindes?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
44.	... damit, wie die Lehrer/innen oder Erzieher/innen auf die Erkrankung Ihres Kindes achten?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Nun möchten wir Sie noch nach Ihrer allgemeinen Zufriedenheit mit der Gesundheitsversorgung Ihres Kindes fragen. Bitte denken Sie an die letzten 12 Monate.

	Waren Sie zufrieden...	nicht zufrieden	teilweise zufrieden	zufrieden	sehr zufrieden	äußerst zufrieden
45.	... mit der gesundheitlichen Versorgung Ihres Kindes ganz allgemein?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Wir bedanken uns herzlich bei Ihnen für Ihre Mitarbeit!

Anlage J: Fragebogen K „betroffene Kinder“

Fragebogen
zur
Versorgung
von Kindern mit
Multiplen Hereditären Exostosen (MHE)

K

Teilstudie MHE, Befragung der Kinder

Durchführende Einrichtung:



**Universitätsklinikum
Hamburg-Eppendorf**

**Institut und Poliklinik
für Medizinische Psychologie**
(Prof. Dr. Dr. Uwe Koch-Gromus,
Direktor)

**Zentrum für
Psychosoziale Medizin**


Code-Nr ____/____/____

Hallo,

wir möchten gerne wissen, wie es Dir zur Zeit geht. Dazu haben wir uns einige Fragen ausgedacht und bitten Dich um Deine Antwort.

- ⇒ Lies bitte jede Frage durch,
- ⇒ überlege, wie es in der letzten Woche war,
- ⇒ kreuze die Antwort an, die am besten zu Dir paßt.

**Es gibt keine richtigen oder falschen Antworten.
Wichtig ist uns Deine Meinung.**

Ein Beispiel: 	nie	selten	manchmal	oft	Immer
In der letzten Woche habe ich gerne Musik gehört	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Bogen ausgefüllt am:

_____ Tag/Monat/Jahr

Bitte sage uns zunächst etwas zu Dir. Kreuze an oder trage ein !

Ich bin ein Mädchen Junge

Ich bin _____ Jahre alt

Wieviele Geschwister hast Du? 0 1 2 3 4 5
 über 5

Welche Schule besuchst Du? Grundschule Hauptschule Realschule

Gesamtschule Gymnasium Sonderschule
 privater Unterricht



17. Fragen zur Versorgung

(Fragen 1 bis 16 finden sich in der Studie „Gesundheitsbezogene Lebensqualität, Familienbelastung und Coping bei an Multiplen Hereditären Exostosen (MHE) erkrankten Erwachsenen und Kindern sowie ihren Angehörigen“ (Albers, 2007).

1. Die folgenden Fragen beziehen sich jetzt auf Dein Verhältnis zu Deinem Arzt, der

Dich wegen Deiner Exostosen behandelt.

<i>Ich habe das Gefühl...</i>	gar nicht	ein wenig	ziemlich	sehr
1. ...dass mein Arzt immer genug Zeit für mich hat.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ...dass er mir alles geduldig erklärt, auch wenn ich mal etwas unaufmerksam bin.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ...dass ich alles verstehe, was er mir erklärt.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ...ich kann mich immer trauen, Fragen zu stellen, wenn ich mal etwas nicht verstanden habe.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
5. ...ich verfüge über ein ausreichendes Wissen über meine Erkrankung.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
6. ...ich darf mich immer an den Entscheidungen, die mein Arzt trifft, beteiligen.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
7. ...ich weiß genug über meine Exostosen, um mich an den Entscheidungen über meine Behandlung zu beteiligen.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

18. Die nächsten Fragen beziehen darauf, wie Deine Lehrer mit Deiner Erkrankung umgehen.

<i>Ich habe das Gefühl...</i>	gar nicht	ein wenig	ziemlich	sehr
1. ...meine Lehrer wissen sehr gut über meine Erkrankung bescheid.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ...meine Lehrer haben ein großes Interesse an meiner Erkrankung.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ...meine Lehrer haben Verständnis, wenn ich wegen meiner Exostosen mal „nicht so gut drauf“ bin.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

19. Gibt es etwas, das Deine Lehrer für Dich tun können, damit Du Dich in der Schule besser fühlst?

20. Jetzt möchten wir noch gerne wissen, ob Du Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen hast.

<i>Sage uns bitte, wie sehr die folgenden Aussagen auf Dich zutreffen.</i>	gar nicht	ein wenig	ziemlich	Sehr
1. Ich habe viel Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. Ich hätte gerne Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. Ich denke der Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen kann mir selbst sehr helfen.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. Ich halte den Kontakt zu anderen Kindern mit Exostosen für sehr wichtig.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

So, die nächsten Fragen noch, dann hast Du es geschafft!

21. Gibt es etwas außer der ärztlichen Versorgung, was Dir helfen könnte, mit den Exostosen besser zurechtzukommen? Denke dabei an Krankengymnastik, Austausch mit anderen Betroffenen...

22. Haben wir in dem Fragebogen etwas vergessen, was für Dich wichtig ist?

23. Wie findest Du den Fragebogen? Gib uns doch mal eine Schulnote!

1	2	3	4	5	6
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Super! Du hast es geschafft!

Vielen Dank für Deine Mitarbeit!

Dauer des Ausfüllens

Anlage K: Faxbefragung „Experten“

*Vielen Dank für Ihre
Auskunft!*

Fax- / Briefantwort

An: Juliane Madee, Medizinstudentin	Code: _____
Fax: 040 – 76 11 16 57	Handy: 0160 – 27 84 94 8
Betreff: Rückmeldung „MHE“, Befragung der Behandelnden	

Sehr geehrte Teilnehmerin, sehr geehrter Teilnehmer,

Aus den Auskünften von Betroffenen und Angehörigen von Personen mit MHE wissen wir, dass die Versorgung von der Diagnosestellung bis zur Behandlung oft als lückenhaft erlebt wird, da es sich vergleichsweise um eine sehr seltene Erkrankung handelt. Um dieser Annahme genauer auf den Grund zu gehen ist neben der Auskunft der Patienten auch Ihre Auskunft als behandelnder Arzt besonders wichtig.

Im Rahmen unserer wissenschaftlichen Untersuchung möchten wir Sie bitten, den folgenden Fragebogen auszufüllen.

Es geht dabei um Ihre **persönliche Einschätzung** der Versorgungssituation. Alle Angaben werden vertraulich behandelt. Außer den wissenschaftlichen Mitarbeitenden erhält niemand Einblick in Ihre persönlichen Daten. Die Daten werden nach Eingang **anonym** verschlüsselt und nur im Rahmen dieser Untersuchung deskriptiv ausgewertet.

Der Fragebogen gliedert sich in zwei Teile. Der erste Teil beinhaltet Fragen zu Ihrer Person. Im zweiten Teil wird dann genauer auf die Versorgungssituation MHE-Betroffener eingegangen. Bitte beantworten Sie alle Fragen.

Teil 1 Angaben zur Person

- 1) Alter _____ Jahre
- 2) Geschlecht männlich
weiblich
- 3) Fachärztliche Ausbildung _____
- 4) Dauer der Ausübung des Berufes _____ Jahre
- 5) Derzeitige Tätigkeit im Krankenhaus
in einer Praxis
- 6.) Falls sie in einem Krankenhaus arbeiten,
welche Position haben Sie derzeit inne? Assistenzarzt
Oberarzt
Chefarzt

Teil 2 Angaben zur Versorgung

	trifft überhaupt nicht zu	trifft ein wenig zu	trifft etwas zu	trifft voll und ganz zu
1) Ich verfüge über ein ausreichendes Wissen über MHE.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2) Ich behandle häufig Patienten mit MHE.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3) Ich stelle meistens die Erst-diagnose.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4) Den Zeitraum zwischen dem ersten Besuch der Patienten bei ihrem Arzt und der Diagnosestellung empfinde ich oft als zu lang.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
5) Ich verfüge über ausreichend Möglichkeiten, auf die individuellen Bedürfnisse meiner Patienten einzugehen.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
6) Meine Patienten verfügen über ein ausreichendes Wissen über MHE.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

7) Ich kann meine Patienten ausreichend über das Krankheitsbild informieren.

8) Die Patienten sind in der Lage, mit mir gemeinsam über die Behandlungsmaßnahmen zu entscheiden. (shared-decision-making)

9) Ich finde es wichtig, dass die Patienten mit mir gemeinsam Entscheidungen treffen.

10) Ich denke, die Überweisung an einen Spezialisten erfolgt in der Regel recht zügig.

11) Ich denke, die Zusammenarbeit und die Kommunikation der Ärzte untereinander ist sehr produktiv.

12) Ich denke, eine psychologische Beratung kann für viele Betroffene sehr sinnvoll sein.

13) Ich denke, der Beitritt in eine Selbsthilfegruppe kann für viele Betroffene sehr hilfreich sein.

14) Ich habe ausreichend Informationen über die Existenz der Selbsthilfegruppe.

15) In der Regel weise ich meine Patienten und deren Angehörige auf die Selbsthilfegruppe hin.

16) Ich denke, die meisten meiner Kollegen verfügen über ein ausreichendes Wissen über MHE.

17) Denken Sie, MHE sollte trotz der Seltenheit bekannter gemacht werden? ja nein

18) Woher beziehen Sie Ihr Wissen über MHE? Literatur
Fortbildungen
Internet
Sonstiges ,

inwiefern?

19) Denken Sie, Sie verfügen über ausreichende
Ressourcen / Wissen, um Ihre Patienten
befriedigend zu behandeln? ja nein

19 a) Falls Sie die Frage mit „nein“ beantworten, woran fehlt es Ihrer Meinung nach
am Meisten und warum?

20) Wie viele MHE-Patienten haben Sie etwa (bzw. behandeln Sie zur Zeit)
schon insgesamt behandelt?

21) In **Prozent**: Wie schätzen Sie die Versorgungssituation von MHE-Erkrankten in Deutschland ein (0% = völlig unzureichend bis 100% = ganz ausgezeichnet)?

_____ %

Raum für persönliche Einschätzung:

Wenn Sie ein Patient fragt, wie Sie ganz allgemein die Versorgungssituation beschreiben würden, was würden Sie antworten (bitte stichwortartig)?

Vielen Dank für Ihre Teilnahme!!

An
stud.-med. Juliane Madee
Brucknerstrasse 27
22083 Hamburg

(Datum, Unterschrift, Stempel)

11 Lebenslauf

Persönliche Angaben

Name	Madee, Juliane
Geburtsdatum	25. Januar 1978
Geburtsort	Hamburg
Familienstand	ledig
Staatsangehörigkeit	deutsch
Eltern	Dr. med. Werner Madee, Facharzt für Chirurgie und Unfallchirurgie Barbara Madee, Übersetzerin

Schulbildung

08/1984 – 07/1988	Grundschule Marmstorf, Hamburg
08/1988 – 07/1997	Werner Heisenberg Gymnasium, Hamburg Allgemeine Hochschulreife

Auslandsaufenthalte

08/1997-04/1998	Au-Pair, Santa Fe, New Mexico, USA
05/1998-08/1998	Au-Pair, Brooklyn, New York, USA

Praktikum

09/1998 – 11/1998	Krankenpflegepraktikum, Krankenhaus Mariahilf, Abtlg. für Innere Medizin, Hamburg, Prof. Dr. med. Planz
12/1998 – 09/1999	Freiwilliges Soziales Jahr, Krankenhaus Mariahilf, Abtlg. für Innere Medizin, Hamburg, Prof. Dr. med. Planz

Studium

10/1999 – 05/2006	Studium der Humanmedizin, Universität Hamburg-Eppendorf
03/2002	Physikum, Universität Hamburg-Eppendorf
Famulaturen	
08/2003 – 09/2003	Kreiskrankenhaus Eckernförde, Abtlg. für Chirurgie, Eckernförde Dr. med. R. Quäschling
03/2004 – 04/2004	Praxis für Orthopädie und Unfallchirurgie, Pretoria, Südafrika Dr. J.G. Myburgh
07/2004 – 08/2004	Marienkrankenhaus, Abtlg. für Innere Medizin, Hamburg Dr. med. H. Bünemann

IV

08/2004 – 09/2004	Praxis für Allgemeinmedizin, Hamburg Dr. med. R. Holzhüter
03/2003	1. Staatsexamen, Universität Hamburg- Eppendorf
03/2005	2. Staatsexamen, Universität Hamburg- Eppendorf
04/2005 – 03/2006	Praktisches Jahr
25.04. – 14. 08.05	1. Tertial Marienkrankenhaus, Abtlg. für Chirurgie, Hamburg Prof. Dr. med. C. Müller, Dr. med. U. Lüttjohann
15.08. – 04.12.05	2. Tertial Marienkrankenhaus, Abtlg. für Anästhesiologie und operative Intensivmedizin, Hamburg Prof. Dr. med. N. Rolf
05.12. – 26.03.06	3. Tertial Asklepios Klinik Barmbek, Abtlg. für Innere Medizin, Hamburg Priv. Doz. Dr. med. G. Grönefeld
05/2006	3. Staatsexamen, Universität Hamburg- Eppendorf
Weiterbildung	
ab 07/2006	Facharztweiterbildung, Asklepios Klinik Harburg, Abteilung für Anästhesiologie und operative Intensivmedizin, Chefarzt PD. Dr. T. Kerner

10 Danksagung

An erster Stelle möchte ich mich ganz herzlich bei meiner Doktormutter Frau Prof. Dr. Monika Bullinger für die Ermöglichung der vorgelegten Arbeit und ihre Unterstützung dabei bedanken. Auch Dr. phil. Carsten Maurischat, Dipl. Psych. der mir bei vielen Fragen zur Seite stand, möchte ich für die außergewöhnlich engagierte Betreuung danken. Der "Bundesselbsthilfevereinigung Multiple kartilaginäre Exostosen (Osteochondrome)", danke ich für die kooperative Zusammenarbeit bei der Erfassung der Daten.

12 Erklärung

Ich versichere ausdrücklich, dass ich die Arbeit selbständig und ohne fremde Hilfe verfasst, andere als die von 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 von einem Fachvertreter an einer anderen Hochschule zur Überprüfung vorgelegt oder mich anderweitig um Zulassung zur Promotion beworben habe.

Unterschrift:
