

Aus der

Universitätsklinik für Kinder- und Jugendmedizin Tübingen
Abteilung Kinderheilkunde I mit Poliklinik
Hämatologie, Onkologie, Gastroenterologie, Nephrologie,
Rheumatologie

**Das Tübinger Transitionsprogramm für Kinder und
Jugendliche mit chronischen entzündlich-rheumatischen
Erkrankungen – eine quantitative Evaluation der
Langzeitergebnisse nach dem Transfer**

**Inaugural-Dissertation
zur Erlangung des Doktorgrades
der Medizin**

**der Medizinischen Fakultät
der Eberhard Karls Universität
zu Tübingen**

vorgelegt von

Böker, Luca Samuel

2025

Dekan: Professor Dr. B. Pichler
1. Berichterstatter: Professorin Dr. J. Kümmerle-Deschner
2. Berichterstatter: Privatdozentin Dr. H. B. Sturm

Tag der Disputation: 08.09.2025

Hinweis im Sinne des Gleichbehandlungsgesetzes:

Aus Gründen der besseren Lesbarkeit wird auf eine geschlechterspezifische Differenzierung, wie z. B. Patient*innen, verzichtet. Entsprechende Begriffe gelten im Sinne der Gleichbehandlung für beide Geschlechter.

Inhaltsverzeichnis

| | |
|---|-----------|
| ABKÜRZUNGSVERZEICHNIS..... | 8 |
| 1 EINLEITUNG..... | 10 |
| 1.1 Chronische entzündlich-rheumatische Erkrankungen mit Beginn im Kindes- und Jugendalter | 10 |
| 1.1.1 Juvenile Idiopathische Arthritis | 10 |
| 1.1.2 Kollagenosen | 12 |
| 1.1.3 Autoinflammatorische Syndrome | 13 |
| 1.2 Herausforderungen in der Betreuung chronisch Erkrankter in der späten Adoleszenz und dem jungen Erwachsenenalter | 14 |
| 1.2.1 Physiologische Herausforderungen | 15 |
| 1.2.2 Psychosoziale Herausforderungen | 15 |
| 1.2.3 Strukturelle Herausforderungen | 16 |
| 1.3 Transition..... | 17 |
| 1.3.1 Definition und Zielsetzung..... | 17 |
| 1.3.2 Standards und Empfehlungen | 18 |
| 1.3.3 Evaluation und Publikation unterschiedlicher Transitionskonzepte | 20 |
| 1.4 Tübinger Transitionsprogramm (TTP) | 22 |
| 1.4.1 Jugendsprechstunde..... | 22 |
| 1.4.2 Weiterführende Angebote | 23 |
| 1.4.3 Information und Dokumentation | 23 |
| 1.4.4 Planung des Transfers | 23 |
| 2 FRAGESTELLUNG UND ZIEL..... | 25 |
| 2.1 Primärer Endpunkt..... | 25 |
| 2.2 Sekundäre Endpunkte | 25 |
| 2.3 Tertiärer Endpunkt..... | 25 |
| 3 METHODEN UND PATIENTEN | 26 |
| 3.1 Scoping Review und Entwicklung eines Fragebogens..... | 26 |
| 3.2 Studiendesign und Patientenkohorte | 27 |

| | | |
|------------|--|-----------|
| 3.2.1 | Einschlusskriterien | 27 |
| 3.2.2 | Ausschlusskriterien | 27 |
| 3.3 | Erhobene Daten | 28 |
| 3.3.1 | Demographische und klinische Daten | 29 |
| 3.3.2 | Individuelle Outcomes..... | 29 |
| 3.3.3 | Soziale Outcomes..... | 31 |
| 3.3.4 | Outcomes im Gesundheitswesen | 33 |
| 3.4 | Statistische Auswertung | 34 |
| 4 | ERGEBNISSE | 35 |
| 4.1 | Scoping Review und Entwicklung des Fragebogens..... | 35 |
| 4.2 | Demographische und klinische Daten..... | 35 |
| 4.3 | Individuelle Outcomes..... | 38 |
| 4.3.1 | Gesundheitsbezogene Lebensqualität..... | 38 |
| 4.3.2 | Körperliche Aktivität | 43 |
| 4.4 | Soziale Outcomes | 45 |
| 4.4.1 | Behandlungszufriedenheit | 45 |
| 4.4.2 | Sonstige soziale Outcomes | 47 |
| 4.5 | Outcomes im Gesundheitswesen | 50 |
| 4.5.1 | Behandlungskontinuität..... | 50 |
| 4.5.2 | Vermeidung unnötiger Krankenhausaufenthalte..... | 54 |
| 4.5.3 | Inanspruchnahme von Versorgungsangeboten | 54 |
| 4.6 | Mögliche prädiktive Faktoren für negative Langzeit-Outcomes | 55 |
| 4.6.1 | Faktoren, die mit einer niedrigeren HR-QoL korrelieren | 55 |
| 4.6.2 | Einflussfaktoren auf die Behandlungszufriedenheit | 58 |
| 5 | DISKUSSION..... | 60 |
| 5.1 | Individuelle Outcomes..... | 60 |
| 5.1.1 | Gesundheitsbezogene Lebensqualität..... | 60 |
| 5.1.2 | Körperliche Aktivität | 63 |
| 5.2 | Soziale Outcomes | 64 |
| 5.3 | Outcomes im Gesundheitswesen | 66 |

| | | |
|------------|---|-----------|
| 5.4 | Mögliche Prädiktoren für negative Langzeit-Outcomes..... | 68 |
| 5.5 | Limitierungen | 71 |
| 5.6 | Schlussfolgerung..... | 73 |
| 6 | ZUSAMMENFASSUNG | 75 |
| 7 | ANHANG..... | 77 |
| 7.1 | Abbildungsverzeichnis..... | 77 |
| 7.2 | Tabellenverzeichnis..... | 78 |
| 7.3 | Endgültige Version des Fragebogens zur Datenerhebung..... | 79 |
| 7.4 | Effekt der Behandlungszufriedenheit auf die einzelnen Kategorien des EQ-5D-5L..... | 84 |
| 8 | LITERATURVERZEICHNIS | 85 |
| 9 | ERKLÄRUNG ZUM EIGENANTEIL..... | 97 |
| 10 | VERÖFFENTLICHUNGEN..... | 98 |
| 11 | DANKSAGUNGEN | 99 |

Abkürzungsverzeichnis

- AAP: American Academy of Pediatrics
- AIS: Autoinflammatorische Syndrome
- arcT: autoinflammation reference center Tübingen
- CAPS: Cryopyrin-assoziierte periodische Syndrome
- CPCS: Center for Pediatric Clinical Studies
- csDMARDs: konventionelle synthetische DMARDs
- DEGS1: Studie zur Gesundheit Erwachsener in Deutschland
- DGRh: Deutsche Gesellschaft für Rheumatologie e.V.
- DMARDs: Disease-modifying anti-rheumatic drugs
- DRFZ: Deutsches Rheumaforschungszentrum
- DRL: Deutsche Rheuma-Liga
- EAA: Enthesitis-assoziierte Arthritis
- EQ-5D-5L: Gesundheitsfragebogen mit 5 Dimensionen auf 5 Leveln
- EULAR: European Alliance of Associations for Rheumatology
- FMF: Familiäres Mittelmeerfieber
- HAQ: Health Assessment Questionnaire
- HCTRC: Health Care Transition Research Consortium
- HR-QoL: Health-related Quality of Life
- IHI: Institute for Healthcare Improvement
- INDIRA: Zentrum für Interdisziplinäre Klinische Immunologie, Rheumatologie und Autoimmunerkrankungen
- IVIG: Intravenöse Immunglobuline
- JAK: Januskinase
- jDM: Juvenile Dermatomyositis
- JIA: Juvenile Idiopathische Arthritis
- JPsA: Juvenile Psoriasisarthritis
- jSLE: Juveniler Systemischer Lupus Erythematodes
- MAS: Makrophagenaktivierungssyndrom
- MED: Department für Innere Medizin; Medizinische Klinik des Universitätsklinikums Tübingen
- MKD: Mevalonatkinase-Defizienz
- MTX: Methotrexat

- NSAR: Nicht-steroidale Antirheumatika
- OA: Oligoarthritis
- OYOF-SES: on your own feet self-efficacy scale
- PGA: Physician Global Assessment Score
- PReS: Pediatric Rheumatology European Society
- PSD: Psychosozialer Dienst
- RF+ PA: Rheumafaktor-positive Polyarthritis
- RF- PA: Rheumafaktor-negative Polyarthritis
- SF-36: Short Form (36) Gesundheitsfragebogen
- sJIA: Systemische juvenile idiopathische Arthritis
- TRAPS: Tumornekrosefaktor-Rezeptor-assoz. periodisches Syndrom
- TTP: Tübinger Transitionsprogramm

1 Einleitung

1.1 Chronische entzündlich-rheumatische Erkrankungen mit Beginn im Kindes- und Jugendalter

Der Begriff „entzündlich-rheumatische Erkrankungen“ umfasst ein breites Spektrum an unterschiedlichen Diagnosen, wovon sich viele schon im Kindes- und Jugendalter manifestieren. Diese sind aufgrund erheblicher Unterschiede in Verlauf und Behandlung als eigenständige Diagnosen mit spezifischen Klassifikationskriterien zu betrachten (1). Zu den pädiatrisch-rheumatischen Erkrankungen gehören die Untergruppen der Juvenilen Idiopathischen Arthritis (JIA), Kollagenosen, wie der Juvenile Systemische Lupus Erythematoses (jSLE) und die Juvenile Dermatomyositis (JDM), Vaskulitiden, und autoinflammatorische Syndrome (AIS). Dabei eint alle Krankheiten die multifaktorielle Genese aus Umweltfaktoren und genetischer Prädisposition. Diese verursachen verschiedene Störungen des Immunsystems, die sich in Autoimmunität oder Autoinflammation äußern, wobei diese Einteilung eher als ein Kontinuum zu verstehen ist (2).

1.1.1 Juvenile Idiopathische Arthritis

Die JIA ist die häufigste chronisch verlaufende entzündlich-rheumatische Erkrankung mit Beginn im Kindes- und Jugendalter (3). Die Prävalenz in europäischen Ländern liegt Studien zufolge bei etwa 100/100.000 Kindern bis 18 Jahre (4-6). Die JIA betrifft vor allem Mädchen (7) und wird von der International League of Associations for Rheumatology (ILAR) definiert als eine Entzündung der Gelenke, die vor dem 16. Geburtstag auftritt, für mindestens sechs Wochen anhält und für die keine Ursache gefunden wird (8). Es werden sechs Unterformen der JIA unterschieden, für die jeweils eigene Klassifikationskriterien existieren und die sich in Häufigkeit, Erkrankungsalter und klinischem Erscheinungsbild unterscheiden. Eine Übersicht ist in Tabelle 1 dargestellt.

| Unterformen der JIA | Relative Häufigkeit, % (9) | Altersgipfel | Klinische Charakteristika |
|---------------------|----------------------------|----------------|---|
| OA (Oligoarthritis) | 45,0 | 2-4 Jahre (10) | - symmetrische Arthritis, max. vier, meist große Gelenke, hohes Uveitis-Risiko - „persistent“ (immer ≤ 4 Gelenke) vs. „extended“ (im Verlauf > 4 Gelenke) (10, 11) |

| | | | |
|---|------|------------------------|--|
| RF- PA (Rheumafaktor- negative Poly- arthritis) | 28,1 | 50% < 6 Jahre (12) | - symmetrische oder asymmetrische Arthritis, oft kleine Gelenke der Hände, Knie, OSG (12) |
| RF+ PA (Rheumafaktor- positive Poly- arthritis) | 1,4 | ca. 9 Jahre (12) | - s. RF- PA; oft kleine Gelenke der Hände und Füße symmetrisch betroffen - öfter Tenosynovitis und extraartikuläre Symptome als bei RF- PA (12) |
| sJIA (Systemische juvenile idiopathische Arthritis) | 3,6 | 2-6 Jahre (13) | - anfangs oligo-, im Verlauf oft polyarthritisch, asymmetrisch, große Gelenke, auch Wirbelsäule - zusätzlich Fieber und Exanthem (13, 14) |
| EAA (Enthesitis- assoziierte Arthritis) | 10,7 | 10-11 Jahre (15) | - meist HLA-B27-positive OA, v.a. der unteren Extremität, im Verlauf Sakroiliitis - einzige Unterform, die Jungen häufiger betrifft (11, 15) |
| JPsA (Juvenile Psoriasis- arthritis) | 4,0 | 3-6 & 10 Jahre (16) | - initial OA, im Verlauf PA v.a. des Knies und kleiner Gelenke, zusätzlich Psoriasis, typische Nageldystrophien, Daktylitis (16-18) |

Tabelle 1: Unterformen der JIA - Epidemiologische und klinische Charakteristika

Die JIA ist aktuell nicht heilbar, somit ist eine kausale Therapie nicht möglich. Allerdings kann eine möglichst frühe und intensive Therapie die Chancen auf das Erreichen einer stabilen Remission deutlich steigern (9, 19-21). Dabei wird das „Treat-to-target-Prinzip“ verfolgt, wonach die Therapieziele anhand spezifischer Messparameter evaluiert werden, um die medikamentöse Therapie gegebenenfalls anzupassen (22). Die Leitlinien zur Behandlung einer JIA sehen bei aktiver Entzündung eine möglichst frühe medikamentöse Behandlung vor und empfehlen die Therapie nach individueller Krankheitsaktivität, -schwere und Risikoprofil zu wählen, um frühzeitig eine Remission zu erreichen. Dazu werden anfangs Nicht-steroidale Antirheumatika (NSAR) und intraartikuläre Steroid-Injektionen, im Verlauf auch konventionelle synthetische Disease-modifying anti-rheumatic drugs (csDMARDs) wie Methotrexat (MTX) oder Sulfasalazin, sowie in den letzten Jahren zunehmend neu entwickelte biologische DMARDs, auch Biologika genannt, eingesetzt. Bei Letzteren handelt es sich um Proteine, die bestimmte für die Pathogenese der JIA relevante Teile

des Immunsystems inhibieren. Die wichtigsten Biologika wirken an TNF-alpha, Interleukin-1 oder Interleukin-6-Rezeptoren (23). Begleitend zur medikamentösen Therapie werden Ergo-, Physio- (24, 25), und psychosoziale Therapie durchgeführt (23).

Trotz zahlreicher Fortschritte in der Behandlung der JIA finden Langzeitstudien nach wie vor hohe Raten an Patienten, die keine stabile Remission erreichen und damit ein höheres Risiko für Langzeitfolgen aufweisen (14, 26, 27). Eine langfristige Betreuung und Behandlung ist daher essentiell, zumal die JIA nicht nur die Lebensqualität mindert (28), sondern auch zahlreiche Komplikationen nach sich ziehen kann. Aus Daten der Kerndokumentation des Deutschen Rheumaforschungszentrums (DRFZ) geht beispielsweise hervor, dass im Jahr 2013 bei 11,6% der über 18.000 eingeschlossenen JIA-Patienten eine Uveitis aufgetreten war (29), die zu bleibender Visusverschlechterung führen kann (30). Gelenkdestruktionen erhöhen darüber hinaus das Risiko für Kiefergelenksdysfunktion, Beinlängenunterschied oder funktionelle Behinderungen, die oftmals operativ behandelt werden müssen (31).

1.1.2 Kollagenosen

1.1.2.1 Juveniler systemischer Lupus erythematodes

Die häufigste chronisch verlaufende Kollagenose mit Beginn im Kindes- und Jugendalter ist der jSLE. Die Prävalenz wird in Europa auf 5-10/100.000 geschätzt, kaukasische Männer sind am seltensten betroffen (32-34).

Der jSLE ist eine B-Zell-vermittelte Erkrankung, bei der Autoantikörper gegen Bestandteile des Zellkerns gebildet werden. Kinder, die an einem jSLE erkranken zeigen dabei oftmals ähnliche Symptome wie erwachsene SLE-Patienten. Dazu zählen Abgeschlagenheit, Fieber, Hepatosplenomegalie und eine generalisierte Lymphadenopathie. Allerdings treten diese bei Kindern und Jugendlichen oft schneller und schwerer auf (35). Auch renale und zentralnervöse Beteiligungen sind beim jSLE häufiger und gravierender als bei der adulten Form (32, 36). Weiter können vor allem die Haut, der Bewegungsapparat und das blutbildende System, aber auch Herz und Lunge beteiligt sein (32).

Die Vermeidung von UV-Exposition zählt zur grundlegenden Behandlung des jSLE. Darüber hinaus kommen Antimalariamittel wie Hydroxychloroquin, sowie NSAR und Glucocorticoide zum Einsatz. Um die Steroiddosis zu senken, werden bei hoher

Krankheitsaktivität zügig csDMARDs eingesetzt (37-39). Bei renaler oder neurologischer Beteiligung wird außerdem der CD20-Antikörper Rituximab empfohlen (40). 2019 wurde außerdem der monoklonale Antikörper Belimumab für Kinder ab 5 Jahren zugelassen (41).

Da die 10-Jahres-Überlebensrate des jSLE in der zweiten Hälfte des letzten Jahrhunderts erheblich gestiegen ist (32, 42), benötigen jSLE-Patienten heute eine engmaschige Langzeitbetreuung. Ansonsten besteht ein erhöhtes Risiko für psychiatrische und muskuloskelettale Langzeitfolgen, Atherosklerose und Nierenschäden infolge der Lupus-Nephritis (43-45).

1.1.2.2 Juvenile Dermatomyositis

Die jDM ist mit einer Inzidenz von 2-3/1.000.000 Kindern pro Jahr eine seltene entzündlich-rheumatische Erkrankung (46, 47). Über eine erhöhte Interferon-I-Ausschüttung, Immunkomplex- und Lymphozyten-Aktivierung kommt es dabei zu einer Schädigung kleiner Gefäße und Muskelzellen (48, 49).

Klinisch zeigen sich eine proximal-betonte, symmetrische Muskelschwäche mit typischen, lividen Hautveränderungen, sowie Schuppung, pathognomonische Gottron-Papeln, Kapillarveränderungen, periorbitale Erytheme und Müdigkeit (49, 50).

Um zeitnah eine Remission zu erreichen, wird die jDM initial mit Steroiden und einem csDMARD therapiert. Bei refraktären Verläufen kommen außerdem Rituximab, Januskinase-Inhibitoren (JAK-Inhibitoren) und intravenöse Immunglobuline (IVIG) zum Einsatz. Die supportive Therapie beinhaltet UV-Schutz, Physio- und Ergotherapie inklusive körperlicher Aktivität (49, 51, 52).

Bei etwa 60% aller Patienten wird ein chronischer Verlauf beobachtet (53), der mit einem erhöhten Risiko für Langzeitfolgen wie Muskelkontrakturen, Kalzinosen und Lipodystrophie einhergeht (54). Auch pulmonale und kardiale Beteiligung einer jDM können im Krankheitsverlauf zu relevanten Komplikationen führen (55, 56).

1.1.3 Autoinflammatorische Syndrome

AIS sind sehr seltene Erkrankungen und umfassen unter anderem das Familiäre Mittelmeerfieber (FMF: 1/500.000 (57, 58)), die Cryopyrin-assoziierten periodischen Syndrome (CAPS: 1-3/1.000.000 (59)), das Tumornekrosefaktor-Rezeptor-assoziierte periodische Syndrom (TRAPS: 1/1.000.000 (57)) und die Mevalonatkinase-Defizienz

(MKD: 1/750.000 (57)). Pathophysiologisch liegt vereinfacht eine Aktivierung des angeborenen Immunsystems durch gewebespezifische Faktoren zugrunde (60).

Klinisch äußern sich AIS primär im frühen Kindesalter durch periodische Fieberschübe, die oftmals durch Belastungszustände wie Stress, Infekte oder körperliche Aktivität getriggert werden (61). Bei FMF treten darüber hinaus vor allem Serositis, Arthritis, Ausschläge und Bauchschmerzen auf (62). FMF wird initial mit Colchicin therapiert, bei therapierefraktären Verläufen kommen IL-1-Inhibitoren zum Einsatz (63, 64). Für FMF und einige andere AIS gilt, dass eine unzureichende Krankheitskontrolle das Risiko der Entwicklung einer Amyloid-A-Amyloidose in erheblichem Maße erhöht (65, 66).

Bei CAPS, TRAPS und MKD zeigen sich neben Fieber, je nach Schweregrad weitere Symptome wie Myalgien und Arthralgien, Hautausschläge, Augenentzündungen. Neben der Amyloid-A-Amyloidose müssen bei CAPS-Patienten Gehör- und Visusverlust, sowie chronische Meningitis, bei MKD-Patienten ein Makrophagenaktivierungssyndrom und kognitive Einschränkungen vermieden werden (67-70). Im akuten Entzündungsschub werden betroffene Patienten vor allem mit NSAR und Steroiden behandelt, darüber hinaus wird eine Dauertherapie mit IL-1-Inhibitoren oder TNF- α -Blockern empfohlen, gelegentlich kommen IL-6-Inhibitoren zum Einsatz (69, 70).

1.2 Herausforderungen in der Betreuung chronisch Erkrankter in der späten Adoleszenz und dem jungen Erwachsenenalter

Kinder mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen sind in vielen Fällen bis in die späte Adoleszenz und das junge Erwachsenenalter hinein auf rheumatologische Betreuung angewiesen. Als späte Adoleszenz wird in dieser Arbeit das Alter von 15-19 Jahren, als junges Erwachsenenalter das Alter von 20-24 Jahren definiert (71), auch wenn keine allgemeingültige Definition dieser Gruppen etabliert ist (72). In dieser Zeitspanne werden individuell herausfordernde körperliche, kognitive, emotionale, soziale und moralische Entwicklungen durchlaufen (73). Jugendliche und junge Erwachsene durchlaufen einen Autonomisierungsprozess und entwickeln eine erhöhte Risikobereitschaft, die an sich ein Gesundheitsrisiko darstellt. Entgegen der ursprünglichen Annahme, zeigten Studien, dass chronisch Erkrankte hiervon

mindestens gleich, eher mehr betroffen sind als gesunde Jugendliche (74, 75). Umso komplexer wird eine umfangreiche Betreuung chronisch Erkrankter in dieser vulnerablen Phase.

1.2.1 Physiologische Herausforderungen

Die Zeit der späten Adoleszenz und des jungen Erwachsenenalters beinhaltet eine Reihe physiologischer Veränderungsprozesse, die sich auf das Erleben und Verhalten von Patienten auswirken (71, 76). Das Gehirn wird in dieser Zeit durch einen Reifungsprozess mit Neuro- und Synaptogenese neu modelliert. Das limbische System, das eine große Rolle im Belohnungssystem spielt, ist dabei deutlich früher entwickelt als der präfrontale Kortex. Da Letzterer für eine funktionierende Impulskontrolle sorgt, ist diese Verzögerung eine mögliche Erklärung für die erhöhte Risikobereitschaft und das erniedrigte Gesundheitsbewusstsein (77, 78). Diese sind für chronisch Erkrankte von größerer Relevanz nicht zuletzt, weil Compliance essentiell für einen langfristigen Behandlungserfolg ist (72).

Darüber hinaus erfolgt in der beschriebenen Zeitspanne ein physiologischer Anstieg der Geschlechtshormonspiegel. Die Zunahme der Östrogenkonzentration hat aktivierende Auswirkungen auf das Immunsystem (79). Dies ist eine Ursache für die höhere Prävalenz unter Frauen und den Prävalenzanstieg entzündlich-rheumatischer Erkrankungen im jungen Erwachsenenalter (80).

1.2.2 Psychosoziale Herausforderungen

Die Adoleszenz und das junge Erwachsenenalter sind eine Zeit der Persönlichkeitsentwicklung mit Distanzierung vom Elternhaus und Aufbau eines eigenen sozialen Umfelds. Es werden eigene Umgangsformen mit Alkohol, Nikotin, weiteren Drogen und auch der eigenen Sexualität entwickelt. Dabei spielen neben der Herkunftsfamilie vor allem Freundesgruppen und selbst gewählte Vorbilder eine wichtige Rolle. Diese nehmen erheblichen Einfluss auf die Entwicklung des Gesundheitsbewusstseins (81). Neue Technologien, vor allem soziale Netzwerke beschleunigen und verstärken diesen Prozess deutlich (82).

Jugendliche mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen sind besonderen Risiken ausgesetzt, da mangelndes Gesundheitsbewusstsein gravierendere Auswirkungen haben kann. So zeigen Studien beispielsweise höhere

Hepatotoxizität von MTX unter Alkoholkonsum (83), Nikotinabusus gilt bei Patienten mit SLE als relevanter Risikofaktor für frühe kardiovaskuläre Ereignisse (84).

Mit zunehmender Bedeutung von Sexualität und Familienplanung im jungen Erwachsenenalter ergibt sich eine weitere Herausforderung für Patienten mit entzündlich-rheumatischen Erkrankungen. So gibt es Hinweise dafür, dass sowohl die Erkrankung als auch deren medikamentöse Behandlung zu unerwünschten Ereignissen in der Schwangerschaft führen können (85-87). Für MTX wurde eine Fetotoxizität eindeutig nachgewiesen (88, 89). Die European Alliance of Associations for Rheumatology (EULAR) empfiehlt daher die gezielte Vorbeugung ungewollter Schwangerschaften und eine enge ärztliche Begleitung und individuell angepasste Therapie bei bestehendem Kinderwunsch (90).

Gleichzeitig bietet diese Phase auch ein großes Potential für positive Entwicklungen und gestärktes Gesundheitsbewusstsein Jugendlicher und junger Erwachsener. Sawyer et al. wiesen auf die Chance hin, den Ablösungsprozess von den Eltern zu nutzen, um das Selbstmanagement und damit die Selbstwirksamkeit junger Erwachsener zu fördern. Eine stabile Vertrauensbasis zwischen medizinischem Personal und Patienten ist in dieser Phase also umso wichtiger, um das Gesundheitsbewusstsein im Hinblick auf chronische Erkrankungen aber auch Sport, Ernährung und Prävention nachhaltig zu stärken (72).

1.2.3 Strukturelle Herausforderungen

In Deutschland dürfen Pädiater die Betreuung ihrer Patienten nur bis zum vollendeten 18. Lebensjahr bei den Krankenkassen abrechnen. Dieser Zeitpunkt fällt nicht nur in die oben beschriebene Reifungs- und Loslösungsphase, sondern liegt in den meisten Fällen auch vor dem Schulabschluss oder dem Abschluss einer Berufsausbildung. Im Alter von 18 Jahren haben darüber hinaus mindestens jeder zweite JIA- und jSLE-, sowie große Teile der jDM-Patienten keine Remission erreicht (44, 91-95). Patienten mit AIS außer Periodisches Fieber, aphthöse Stomatitis, Pharyngitis, Adenitis (PFAPA) Syndrom bedürfen grundsätzlich lebenslanger Betreuung (96, 97). Damit ist ein Transfer in die Erwachsenenmedizin notwendig, um eine langfristige Behandlung zu ermöglichen und die ohnehin eingeschränkte Lebensqualität von Patienten mit rheumatischen Erkrankungen zu verbessern (98-100).

Untersuchungen zeigen, dass bis zu 30-50% der Patienten, die mit entzündlich-rheumatischen Erkrankungen in pädiatrisch-rheumatologischer Behandlung sind, zumindest vorübergehend keine rheumatologische Weiterbehandlung in Anspruch nehmen (36). Auch unabhängig von den hohen Abbruchraten weisen Patienten nach dem Transfer eine erhöhte Krankheitsaktivität auf, was als Risikofaktor für Komplikationen und Langzeitfolgen gewertet werden kann (101, 102).

Minden und Niewerth sahen 2013 in der beschriebenen Situation eine noch ungelöste Aufgabe, dem Anspruch auf „Versorgungsmanagement insbesondere zur Lösung von Problemen beim Übergang in die verschiedenen Versorgungsbereiche“ nach SGB V §11 Absatz 4 zu entsprechen (103). Ein Sondergutachten des Sachverständigenrats zur Begutachtung der Entwicklung im Gesundheitswesen stellte im Jahr 2009 eine Gefahr der Unterversorgung chronisch-erkrankter Jugendlicher beim Übergang in die Erwachsenenmedizin fest und schlug dem Gemeinsamen Bundesausschuss eine Reihe an Maßnahmen auf Systemebene vor, die unter anderem auf eine gesicherte Finanzierung und eine personelle Abbildung des Mehraufwands abzielten, den der Übergang in die Erwachsenenmedizin darstelle (104). Da bislang aus diesen Empfehlungen keine nennenswerte gesundheitspolitische Konsequenz gezogen wurde, bleibt das Versorgungsmanagement beim Transfer weiter eine Herausforderung für medizinisches Personal, Patienten und Eltern und hängt dabei nicht zuletzt am individuellen Engagement der Einrichtungen vor Ort.

1.3 Transition

Es besteht breiter Konsens hinsichtlich der Notwendigkeit strukturierter Transitionsprogramme, um den vielfältigen Herausforderungen, denen Patienten mit chronischen Erkrankungen in der späten Adoleszenz ausgesetzt sind, adäquat zu begegnen.

1.3.1 Definition und Zielsetzung

Der Begriff „Transition“ beschreibt weit mehr als den administrativen Wechsel von pädiatrischer in die Erwachsenenbehandlung. Blum et al. schlugen 1993 eine bis heute weitgehend akzeptierte Definition als „gezielter, geplanter Übergang von Jugendlichen und jungen Erwachsenen mit chronischen körperlichen und medizinischen Problemen von einer kindzentrierten zu einer erwachsenenorientierten Gesundheitsbetreuung“

vor (105). Jordan und McDonagh ergänzten, dass ein solcher Übergang auch außerhalb des Gesundheitswesens stattfinden, da Jugendliche gleichzeitig den oben beschriebenen Veränderungen im Prozess des Erwachsenwerdens ausgesetzt seien (106). Damit ist die Transition ein multidimensionaler Prozess, der den Transfer als Wechsel in die Erwachsenenbehandlung einschließt, aber sowohl zeitlich als auch inhaltlich weit darüber hinausgeht. Vorrangiges Ziel der Transition ist eine individuelle, alters- und entwicklungsgemäße, ganzheitliche Vorbereitung auf den Transfer und eine reibungslose Eingliederung in die internistische Betreuung. Dieser Prozess schließt im Optimalfall nicht nur medizinische, sondern auch psychosoziale, pädagogische und berufliche Aspekte mit ein (103, 107). Somit sollen Patienten nicht nur Wissen über ihre Diagnose und Therapie erlangen, sondern auch Kompetenzen wie Selbstmanagement und Sprachfähigkeit im medizinischen Kontext erlernen. Eine entwicklungsgemäße Behandlung beinhaltet in dieser Phase auch eine begleitete Auseinandersetzung mit den oben genannten physiologischen und psychosozialen Veränderungen in der Adoleszenz. Zu den Kernthemen sollten dementsprechend auch allgemeines Gesundheitsbewusstsein, Sexualität, der Umgang mit Rauschmitteln, sowie schulische und berufliche Orientierung gehören (36).

1.3.2 Standards und Empfehlungen

Die American Academy of Pediatrics (AAP) veröffentlichte 2011 Konsens-basierte Empfehlungen zur allgemeinen Implementierung von Transitionsmaßnahmen in die medizinische Versorgung. Diese sehen eine frühzeitige, stufenweise Vorbereitung der Patienten und Eltern auf den Transfer vor. Dabei sollen vor allem individuelle Fähigkeiten und Entwicklungsstufen der Patienten den zeitlichen Ablauf bestimmen. Außerdem wurden eine schriftliche Transitionsrichtlinie, ein standardisierter Transitionsplan und eine fortlaufende Prozessevaluation empfohlen (107).

Die EULAR und die Pediatric Rheumatology European Society (PReS) gab 2017 Empfehlungen, Standards und Qualitätsmarker für Transitionsprogramme für Jugendliche und junge Erwachsene mit entzündlich-rheumatischen Erkrankungen heraus. Diese betonen die Bedeutung Patienten-orientierter Maßnahmen durch ein spezifisch geschultes interdisziplinäres Team, mit frühestmöglichem Beginn und strukturierter Dokumentation. Eine ausführliche Darstellung findet sich in Tab. 2.

| | |
|-----|---|
| 1. | Junge Menschen mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen sollten Zugang zu qualitativ hochwertiger Transition bekommen, die individuell und in enger Zusammenarbeit von medizinischen Fachkräften mit den Patienten und ihren Familien abläuft. |
| 2. | Die Transition sollte frühestmöglich begonnen werden, also in der frühen Adoleszenz oder direkt nach Diagnosestellung bei späterem Auftreten. |
| 3. | Während der Transition muss direkte Kommunikation zwischen den Hauptbeteiligten (mindestens Patienten, Eltern, Pädiater, Internist) erfolgen. Vor und nach dem Transfer sollten direkte Kontaktaufnahmen zwischen dem pädiatrischen und dem internistischen Team erfolgen. |
| 4. | Die individuellen Transitionsprozesse und -fortschritte sollten sorgfältig in den Krankenakten dokumentiert und mit den Patienten und deren Familien geplant werden. |
| 5. | Alle rheumatologischen Einrichtungen und Kliniken, sowohl pädiatrisch als auch internistisch, müssen über eine schriftlich vereinbarte und regelmäßig aktualisierte Transitionsrichtlinie verfügen. |
| 6. | Es sollte eine klare, schriftliche Beschreibung des multidisziplinären Transitionsteams geben. Dieses sollte einen designierten Transitionskoordinator beinhalten. |
| 7. | Die Transition muss Patienten-fokussiert und entwicklungsgerecht organisiert sein und die Komplexität der Entwicklung von Patienten in dieser Phase berücksichtigen. |
| 8. | Es muss ein Transfer-Dokument vorliegen. |
| 9. | Medizinisches Personal, das in Transition und die Behandlung von Jugendlichen und jungen Erwachsenen eingebunden ist, muss über angemessene Ausbildung in Sachen pädiatrischer entzündlich-rheumatischer Erkrankungen als auch der Betreuung dieser Patientengruppe verfügen. |
| 10. | Es muss eine sichere Finanzierung geben, um spezifisch die Transition und kontinuierliche Betreuung von Patienten, die in die Erwachsenenbetreuung wechseln, zu gewährleisten. |
| 11. | Es muss eine frei zugängliche elektronische Plattform geben, auf der Empfehlungen, Standards und Ressourcen zur Transition bereitgestellt werden. |
| 12. | Mehr Evidenz-basiertes Wissen und Vorgehensweisen sind erforderlich, um die Ergebnisse von Patienten mit pädiatrischen chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen zu verbessern. |

Tabelle 2: Empfehlungen und Standards von EULAR und PRoS zur Transition bei jungen Patienten mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen (108); *eigene Übersetzung*

Auch vor Veröffentlichung dieser Empfehlungen wurden zahlreiche Transitionsprogramme entwickelt. Aktuell sind in Deutschland über 40 Einrichtungen bekannt, die ein solches für Patienten mit entzündlich-rheumatischen Erkrankungen anbieten (109). Weitere Unterstützung bekommen Patienten von Seiten der Deutschen Rheuma-Liga (DRL), oder dem Arbeitskreis Transitionsmedizin der Deutschen Gesellschaft für Rheumatologie (DGRh) in Form von Web-basierten Plattformen mit Informationsangeboten und individueller Beratung. Zusätzlich wurden im deutschsprachigen Raum Transitionsamps und spezifische Patienten- und Elternschulungen etabliert (110).

Mit dem Berliner Transitionsprogramm wurde erstmals ein überregionaler, krankheitsübergreifender Ansatz vor allem im Nordosten Deutschlands eingeführt. Dieser beinhaltet je einen Gesprächstermin vor und nach dem Transfer, sowie die Einsetzung eines Case Managers und spezifische Materialien zur strukturierten Informationsweitergabe. Dieses Programm wird von einigen Krankenkassen finanziert, womit ein wichtiger Fortschritt für die Etablierung der Transition in die Regelversorgung erreicht wurde (111). Darüber hinaus bleiben jedoch die Ressourcen der Einrichtungen vor Ort der entscheidende Faktor dafür, wie weitreichend Jugendliche und junge Erwachsene mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen auf dem Weg in die Erwachsenenmedizin begleitet werden können (110).

1.3.3 Evaluation und Publikation unterschiedlicher Transitionskonzepte

Mit der zunehmenden Evidenz bezüglich der Wirksamkeit von Transitionsmaßnahmen (112-114), wächst auch die Relevanz der direkten Vergleichbarkeit einzelner Ansätze insbesondere im Hinblick auf deren Langzeitwirkung (36, 115). Zahlreiche Studien kamen in der Vergangenheit jedoch zu dem Schluss, dass einheitliche, standardisierte Outcome-Parameter fehlen (115-117). Das Expertengremium von EULAR und PReS merkte darüber hinaus an, dass sich eine erfolgreiche Transition nicht anhand eines isolierten Parameters messen lasse. Stattdessen sei ein multidimensionales Vorgehen indiziert, das klinische Parameter, individuelles Erleben, psychosoziales und berufliches Outcome, sowie Betreuungsdhärenz in der Erwachsenenmedizin beinhalten solle (108).

Ein interdisziplinäres Gremium aus Mitgliedern des Health Care Transition Research Consortium (HCTRC) mit über hundert externen Experten, Patienten und deren Familien erarbeitete anhand einer Delphi-Methode konkrete Vorschläge für solche Parameter (118). Die insgesamt zehn Outcomes wurden in drei Kategorien eingeteilt (Tab. 3).

| Kategorie | Outcome-Parameter |
|-------------------------------------|---|
| <i>Individuelle Outcomes</i> | Lebensqualität, Verständnis von der eigenen Erkrankung, möglichen Komplikationen und der Therapie, Selbstmanagement-Fähigkeiten, Therapie- und Diätadhärenz, Verständnis von Versicherungsangelegenheiten |
| <i>Soziale Outcomes</i> | Soziales Netzwerk von Freunden |
| <i>Outcomes im Gesundheitswesen</i> | Inanspruchnahme regelmäßiger medizinischer Termine, eine feste medizinische Betreuung, Vermeidung unnötiger Krankenhausaufenthalte |

Tabelle 3: Vorschlag für Outcome-Parameter zur Erfolgskontrolle von Transitionsmaßnahmen nach Fair et al. (119)

Das Gremium maß dabei dem Erreichen einer hohen Lebensqualität die höchste Bedeutung bei und wies auf die fehlende Evidenz hinsichtlich geeigneter Messinstrumente für die jeweiligen Parameter hin (118).

Ein weiterer Vorschlag zur Untersuchung der Langzeitwirkung von Transitionsprogrammen wurde 2014 in einem Review von Prior et al. unterbreitet (119). Dabei wurde untersucht, anhand welcher Parameter Transitionsprogramme in der Vergangenheit evaluiert worden waren. Diese wurden in die Kategorien des „Triple Aims“, eine Strategie des US-amerikanischen Institute for Healthcare Improvement (IHI) zur Verbesserung von Gesundheitssystemen (120) eingeteilt (Tab. 4).

| Kategorie | Outcome-Parameter |
|--|---|
| <i>Individuelle Behandlungserfahrungen</i> | Behandlungszufriedenheit, Barrieren in der Behandlung |
| <i>Gesundheitszustand der Bevölkerung</i> | Behandlungsadhärenz, Krankheits-spezifische Parameter, Mortalität, von Patienten berichtete Parameter, Behandlungsprozess, Selbstmanagement-Fähigkeiten |
| <i>Versorgungskosten</i> | Kosten, Behandlungslücken, Inanspruchnahme von Versorgungsangeboten |

Tabelle 4: Zusammenstellung der am häufigsten untersuchten Outcome-Parameter in Studien zur Evaluation bestehender Transitionsprogramme nach Prior et al. (120)

Nach Krankheits-spezifischen und von Patienten berichteten Parametern wurden die Inanspruchnahme von Versorgungsangeboten, Selbstmanagement-Fähigkeiten und die Behandlungszufriedenheit am häufigsten untersucht. Auch Prior et al. betonten das Fehlen einheitlicher Messinstrumente (119).

Bisher wurden zahlreiche Ansätze für rheumatologische Transitionsprogramme publiziert und evaluiert. Dabei wurden vor allem Lebensqualität (112, 113, 121), Behandlungszufriedenheit (114, 122-126) und Behandlungskontinuität, respektive Follow-Up Rate nach dem Transfer (114, 123, 126, 127) untersucht. Allerdings beinhalteten nur wenige Studien Langzeitergebnisse, meistens mit nur kurzem Follow-Up. Neben der Frage, wie sich der Erfolg eines Transitionsprogramms messen lässt, rückt die Frage nach Einfluss- und prognostischen Faktoren für Langzeitergebnisse zunehmend in den Fokus wissenschaftlicher Untersuchungen (128).

1.4 Tübinger Transitionsprogramm (TTP)

Das TTP ist Teil des Zentrums für Kinder- und Jugendrheumatologie, des Autoinflammation Reference Center Tübingen (arcT), des Zentrums für Interdisziplinäre Klinische Immunologie, Rheumatologie und Autoimmunerkrankungen (INDIRA) und der Medizinischen Klinik des Universitätsklinikums Tübingen (MED). Mit mehr als zwanzig Jahren Erfahrung, kontinuierlicher interner Evaluation und supervidierter Revision ist es ein etabliertes Programm mit festen Standards und Richtlinien. Es besteht aus einem interdisziplinären Team mit pädiatrischen und internistischen Rheumatologen, Mitarbeitern des Psychosozialen Dienstes (PSD), Physiotherapeuten, Krankenpflegern und Pädagogen.

1.4.1 Jugendsprechstunde

Die Jugendsprechstunde stellt das zentrale Element des TTP dar. Dabei handelt es sich um eine wöchentliche Sprechstunde in der rheumatologischen Ambulanz der Universitätskinderklinik, an der zusätzlich ein internistischer Rheumatologe teilnimmt. Patienten werden in der Regel ab einem Alter von dreizehn Jahren einbestellt, der Zeitpunkt des Eintritts wird allerdings individuell abhängig von der Krankheitsaktivität und dem persönlichen Entwicklungsstand der Patienten bestimmt. Diese werden in wöchentlichen Sitzungen des interdisziplinären Transitionsteams besprochen. Dort werden auch Fortschritte hinsichtlich Krankheits- und Therapiewissen, Selbstmanagement, persönlicher Entwicklung und Transferbereitschaft diskutiert und das weitere Vorgehen individuell geplant.

Jugendliche und junge Erwachsene werden regelmäßig viertel- bis halbjährlich in der Jugendsprechstunde vorstellig. Bei den Terminen übernehmen die Patienten selbstständig die Interaktion mit den Ärzten, während Eltern außerhalb des Untersuchungszimmers warten. Neben der allgemeinen Untersuchung stehen bei jedem Termin in der Jugendsprechstunde die Förderung des Selbstmanagements und die Schulung über die eigene Erkrankung und deren Therapie im Vordergrund. Um eine entwicklungsgerechte Behandlung zu garantieren, wird besonderes Augenmerk auf relevante Themen der späten Adoleszenz und des frühen Erwachsenenalters gelegt, wie beispielsweise körperliche Aktivität, Ernährung, Drogenkonsum, Sexualität und berufliche Orientierung. Am Ende eines jeden Besuchs sind die Eltern anwesend und werden in die Besprechung des Krankheitsverlaufs und der weiteren Behandlung mit einbezogen.

1.4.2 Weiterführende Angebote

Das TTP beinhaltet über die Jugendsprechstunde hinaus regelmäßige, meist halbjährliche Gesprächstermine mit Mitarbeitenden des PSD. Diese bieten Raum für weiterführende Schulungen, unter anderem hinsichtlich sozialmedizinischer Aspekte wie Krankenversicherung und Schwerbehindertenausweis, sowie für die allgemeine Förderung der Transitionskompetenz. Außerdem finden jährliche Termine bei einem Physiotherapeuten statt, die weiterführende Schulungsmöglichkeiten speziell hinsichtlich körperlicher Aktivität und deren Auswirkungen auf den Verlauf und die Therapie chronischer entzündlich-rheumatischer Erkrankungen bieten. Das TTP sieht bei Bedarf auch pädagogische Unterstützung durch die Klinikschule vor. Diese findet individuell und in Kooperation mit der regulären Schule oder Ausbildungsstätte der Patienten statt und zielt auf optimalen Nachteilsausgleich, sowie einen geregelten Berufseinstieg ab. Außerdem werden Patienten im TTP ermutigt, eines der jährlich stattfindenden Transitions camps zu besuchen. Dabei handelt es sich um ein mehrtägiges Zeltlager für Jugendliche und junge Erwachsene mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen, das als weitere Schulungsmöglichkeit und zur Vernetzung Betroffener dient.

1.4.3 Information und Dokumentation

Patienten des TTP bekommen zu Beginn der individuellen Transition eine Transitionsmappe ausgehändigt, die Informationsmaterialien bezüglich des Prozesses, wie auch zu Transitions-spezifischen Themen beinhaltet. Die Mappe dient darüber hinaus zur Dokumentation des individuellen Fortschritts anhand der Tübinger Readiness-Checkliste. Diese wurde gezielt entwickelt, um die Transitionskompetenz der Patienten im Verlauf abzubilden und individuellen Schulungsbedarf aufzudecken.

Alle Besprechungen, Visiten, Patienten- und Elterngespräche werden außerdem im Abteilungs-internen Dokumentationssystem festgehalten.

1.4.4 Planung des Transfers

Im Rahmen des letzten Termins in der Jugendsprechstunde wird eine ausführliche Epikrise erstellt, die als Transferdokument zur Information für die weiterbehandelnden Ärzte in der Erwachsenenrheumatologie dient. Diese wird den Patienten mit der Transitionsmappe ausgehändigt.

Das interdisziplinäre Team des TTP evaluiert regelmäßig die Transferbereitschaft von Patienten, um gemeinsam den geeigneten Zeitpunkt und die geeignete Einrichtung für die Weiterbehandlung zu ermitteln. Dabei spielen neben dem Alter und der Transitionskompetenz auch die Diagnose und die Krankheitsaktivität eine entscheidende Rolle. Die Herangehensweise im TTP sieht vor, Patienten grundsätzlich mit möglichst niedriger Krankheitsaktivität, im Optimalfall nach Erreichen einer stabilen Remission zu transferieren. Durch die gleichzeitige Betreuung durch pädiatrische und internistische Rheumatologen wird im TTP eine Betreuung über den 18. Geburtstag hinaus und somit eine Individualisierung des Transferzeitpunkts ermöglicht. Außerdem wird angestrebt, dass schon vor dem letzten Termin im TTP ein Termin zur Weiterbehandlung in einer geeigneten rheumatologischen Einrichtung vereinbart wurde.

Auf diese Weise werden jährlich zwischen 12 bis 15 Patienten aus dem TTP in die Erwachsenenrheumatologie transferiert. 44,6% der Patienten werden im Rahmen des INDIRA-Netzwerks in die rheumatologische Abteilung der MED überwiesen, insbesondere bei schweren Krankheitsverläufen mit hoher Krankheitsaktivität, um eine möglichst gute Behandlungskontinuität zu garantieren.

2 Fragestellung und Ziel

Das TTP ist ein im klinischen Alltag etabliertes, strukturiertes Transitionsprogramm, das vor allem anhand der Rückmeldungen aktueller Patienten kontinuierlich evaluiert und überarbeitet wird, um eine entwicklungsgerechte Behandlung und optimale Vorbereitung auf den Transfer zu garantieren. Bisher war noch keine Evaluierung des Langzeitoutcomes erfolgt.

Daher sollte das TTP in dieser Arbeit vorgestellt und evaluiert werden, um zu den laufenden Bemühungen beizutragen, verschiedene Ansätze unterschiedlicher Transitionsprogramme anhand gängiger Outcome-Parameter abzufragen und somit eine Vergleichbarkeit herzustellen.

Ziel dieser Arbeit war es, individuelle, soziale und das Gesundheitssystem betreffende Langzeitergebnisse des TTP zu analysieren und mögliche prognostische Faktoren für ein negatives Outcome zu identifizieren.

2.1 Primärer Endpunkt

Als primärer Endpunkt wurde die langfristige gesundheitsbezogene Lebensqualität ehemaliger Patienten des TTP nach dem Transfer im Vergleich mit der deutschen Gesamtbevölkerung erhoben. Diese wurde definiert anhand der Häufigkeit und Schwere der Probleme in den Kategorien des EQ-5D-5L, sowie der heutigen gesundheitlichen Verfassung auf einer standardisierten VAS.

2.2 Sekundäre Endpunkte

Sekundäre Endpunkte waren weitere Langzeitoutcomes der Transition, inklusive der Behandlungszufriedenheit, Behandlungskontinuität und der Häufigkeit körperlicher Aktivität.

2.3 Tertiärer Endpunkt

Als tertiärer Endpunkt wurden die Auswirkungen demographischer und klinischer Faktoren auf die langfristige gesundheitsbezogene Lebensqualität und die Behandlungszufriedenheit untersucht, um Patienten mit Risiken für negative Langzeit-Outcomes früh zu erkennen, Transitionsmaßnahmen gezielt anzupassen und so das Outcome nachhaltig zu verbessern.

3 Methoden und Patienten

3.1 Scoping Review und Entwicklung eines Fragebogens

Um einen Überblick über den aktuellen Stand der Forschung zu gewinnen und Kriterien für gelungene Transition sowie Outcome-Parameter zur Evaluation von Transitionsprogrammen zu finden, wurde ein Scoping Review durchgeführt. Suchbegriffe beinhalteten „pediatric rheumatic disease“, „health care transition“, „long-term outcome“, „transfer“, „evaluation“ und „transition program“. Es wurden alle Studien eingeschlossen, die entzündlich-rheumatische Erkrankungen mit Beginn im Kindes- und Jugendalter behandelten und entweder ein Transitionsprogramm vorstellten oder evaluierten oder mindestens ein Langzeit-Outcome der Transition untersuchten. Aus den Ergebnissen des Reviews wurde die erste Version des Fragebogens für die vorliegende Studie erstellt. Im Vorfeld der Studie fand eine initiale Beratung und eine Evaluation des vorläufigen Fragebogens in der Forschungswerkstatt „Qualitative Methoden“ des Universitätsklinikums Tübingen statt. Im Rahmen eines iterativen Team-Prozesses wurde der Fragebogen von einer Mitarbeiterin des PSD, zwei pädiatrischen Rheumatologinnen und einem internistischen Rheumatologen überarbeitet, die jeweils Teil des interdisziplinären Teams des TTP waren. Diese bewerteten den Fragebogen unabhängig voneinander hinsichtlich Relevanz, Prägnanz und Verständlichkeit. Im Anschluss wurde der Fragebogen mit derselben Fragestellung von drei aktuellen Patienten des TTP und drei externen Rezensenten beurteilt. Diese wurden gezielt rekrutiert, sodass die voraussichtliche Studienkohorte hinsichtlich klinischer und demographischer Aspekte bestmöglich repräsentiert würde. Die Patienten wurden darüber hinaus gebeten, die Bedeutung bestimmter Komponenten der Transition im TTP sowie die relevanten Langzeit-Outcomes subjektiv zu bewerten. Daraufhin fand eine abschließende Diskussion aller Rückmeldungen im Transitionsteam statt, bevor die endgültige Zusammenstellung der Items für den Fragebogen beschlossen wurde. Der Fragebogen ist unter 7.3 angehängt.

3.2 Studiendesign und Patientenkohorte

Die vorliegende Studie zur empirischen Evaluation der Tübinger Jugendsprechstunde wurde als monozentrische Querschnittsstudie durchgeführt. Dazu wurde die Grundgesamtheit aller ehemaligen Patienten des TTP in die Rekrutierung aufgenommen, die die unten genannten Einschlusskriterien erfüllten. Die Befragung erfolgte anhand eines Fragebogens, der sowohl online als auch in Papierform zugänglich war. Ergänzende klinische und demographische Daten wurden dem elektronischen Dokumentationsprogramm ARDIS 2.0 („Arthritis and Rheumatism Database and Information System“; axaris – software & systeme GmbH) entnommen. Das Studienvorhaben steht in Einklang mit der Deklaration von Helsinki und wurde von der Ethik-Kommission an der Medizinischen Fakultät der Eberhard-Karls-Universität und am Universitätsklinikum Tübingen bewilligt (411/2020B0).

3.2.1 Einschlusskriterien

Voraussetzung für den Einschluss in die Studie war die Diagnose einer chronisch-entzündlichen Gelenkerkrankung, einer systemischen rheumatischen Erkrankung oder einer Autoinflammatorischen Erkrankung und eine kontinuierliche Versorgungsdauer in der rheumatologischen Ambulanz der Universitätsklinik für Kinder- und Jugendmedizin Tübingen von mehr als zwei Jahren.

Außerdem mussten mindestens zwei Vorstellungen in der Jugendsprechstunde stattgefunden haben, mindestens eine davon im Alter von 17 bis 18 Jahren.

Eingeschlossen wurden alle Patienten, auf die alle oben genannten Kriterien zwischen Januar 2000 und Dezember 2019 zutrafen.

3.2.2 Ausschlusskriterien

Von der Studie ausgeschlossen wurden alle Patienten, die der Studienteilnahme nicht einwilligten und weder auf die initiale Einladung zur Studienteilnahme noch die beiden Erinnerungsnachrichten reagierten.

3.3 Erhobene Daten

Vor Beginn der Datenerhebung wurde anhand des Dokumentationsprogramms ARDIS 2.0 ein Screening aller ehemaligen Patienten des TTP hinsichtlich der Einschlusskriterien durchgeführt. Daraus resultierte die Grundgesamtheit der Patienten, die zur Studienteilnahme eingeladen wurden.

Der Fragebogen wurde in das Online-Befragungstool Questback/Unipark implementiert. Dort wurden für alle Patienten, die die Einschlusskriterien erfüllten, personalisierte Links zur Umfrage erstellt, um die Zuordnung zu einer pseudonymisierten Studiennummer zu ermöglichen. Anhand dieser Links wurde ein personalisierter QR-Code erstellt, welcher Patienten direkt zu einem Online-Fragebogen mit pseudonymisierter Studiennummer führte.

Die Grundgesamtheit der Patienten wurde zu Beginn der Datenerhebung per Brief zur Studienteilnahme eingeladen. Dazu wurde die letzte bekannte Adresse verwendet die im Dokumentationsprogramm ARDIS 2.0 hinterlegt war. Die Einladung beinhaltete ein kurzes Anschreiben, den Fragebogen in Papierform, eine ausführliche Aufklärung mit Einverständniserklärung zu Studienteilnahme und Datenschutz sowie den personalisierten QR-Code.

Eine schriftliche Erinnerung erfolgte nach zwei Monaten bei allen Patienten, die nicht auf die initiale Einladung reagiert hatten, vorausgesetzt es war keine Umzugsbenachrichtigung eingegangen. Um den Rücklauf zu erhöhen, wurde diesem Anschreiben ein frankierter Rückumschlag beigelegt.

Nach weiteren zwei Monaten erfolgte eine telefonische Kontaktaufnahme zu allen Patienten, die nicht auf die erste Erinnerung reagiert hatten. Dazu wurde die letzte bekannte Telefonnummer verwendet, die ebenfalls im ARDIS 2.0 hinterlegt war.

Die postalischen Antworten auf die Studieneinladung wurden zentral gesammelt und manuell in eine als eCRF angelegte Excel-Tabelle übertragen. Digitale Studienteilnahmen wurden aus Questback/Unipark in eine Excel-Tabelle exportiert und anschließend in die eCRF übertragen. Die Daten wurden stellenweise durch importierte Daten aus ARDIS 2.0 ergänzt. Dies ist im Folgenden durch einen kurzen Vermerk gekennzeichnet.

Im Rahmen der Einverständniserklärung zur Studienteilnahme wurde außerdem ein freiwilliges Einverständnis für eine weitere telefonische Kontaktaufnahme zur

weiterführenden Befragung eingeholt. Diese Nacherhebung erfolgte zwei Monate nach Eingang der letzten Fragebögen.

Demographische und klinische Daten derjenigen, die nicht an der Studie teilnahmen, wurden nach Abschluss der Datenerhebung aus ARDIS 2.0 erhoben und anonymisiert ausgewertet, wofür zuvor ein generelles Ethikvotum eingeholt worden war.

3.3.1 Demographische und klinische Daten

Demographische Daten umfassten:

- Alter (ARDIS)
- Geschlecht (ARDIS)
- Familienstand
- Schulabschluss
- Ausbildung und Erwerbstätigkeit
- Wohnsituation
- Beantragung eines Schwerbehindertenausweises

Klinische Daten umfassten:

- Diagnose (ARDIS)
- Medikamentöse Therapie
 - o zum Zeitpunkt des letzten Termins in der Jugendsprechstunde (ARDIS)
 - o zum Zeitpunkt der Studienteilnahme
- Krankheitsaktivität nach Physician Global Assessment Score (PGA) zum Zeitpunkt des letzten Termins in der Jugendsprechstunde (ARDIS)

Um die Repräsentativität der Studienkohorte abzuschätzen, wurde die Studienkohorte mit der nicht-teilnehmenden Kohorte hinsichtlich demografischer und klinischer Daten verglichen.

3.3.2 Individuelle Outcomes

3.3.2.1 Gesundheitsbezogene Lebensqualität

Die langfristige Gesundheitsbezogene Lebensqualität (HR-QoL) nach dem Transfer diente als primärer Endpunkt der Studie. Gemessen wurde die HR-QoL mit dem EQ-5D-5L, einem validierten und gut erprobten Messinstrument, entwickelt von der EuroQol-Gruppe. Hier wurde die vorliegende Studie im Voraus unter der Register-

Nummer 33720 registriert und die Nutzung des EQ-5D-5L für das Studienvorhaben offiziell lizenziert.

Der EQ-5D-5L fragt die HR-QoL in fünf Dimensionen jeweils auf einer fünfstufigen Likert-Skala ab:

- Beweglichkeit/Mobilität
- Selbstversorgung
- Alltägliche Tätigkeiten
- Schmerzen/Körperliche Beschwerden
- Angst/Niedergeschlagenheit

Dabei stehen niedrigere Werte für geringere Probleme in den einzelnen Dimensionen. Die Ergebnisse wurden einerseits nach der Häufigkeit, mit welcher Probleme in den einzelnen Dimensionen auftraten ausgewertet, andererseits nach der Anzahl Teilnehmender die Probleme in keiner, einer oder mehreren Kategorien angaben.

Aus den Werten der einzelnen Dimensionen wird anhand eines validierten Instruments ein Index-Wert des EQ-5D-5L errechnet. Dieser ergibt somit für jedes individuelle Antwortprofil einen metrischen Wert für die HR-QoL zwischen 0 (geringste HR-QoL) und 1 (höchste HR-QoL; entspricht keinen Problemen in allen fünf Dimensionen).

Zusätzlich fragt der EQ-5D-5L die gesundheitliche Verfassung am Tag der Studienteilnahme auf einer Visuellen Analogskala (VAS) von 0 (schlechteste) bis 100 (beste gesundheitliche Verfassung) ab.

Der Anteil an Patienten, die Problemfreiheit in den jeweiligen Dimensionen des EQ-5D-5L angaben und die aktuelle gesundheitliche Verfassung auf der VAS wurden mit publizierten Durchschnittswerten der deutschen Bevölkerung (129) verglichen.

3.3.2.2 Körperliche Aktivität

Anhand der körperlichen Aktivität wurde ein weiteres Langzeit-Outcome nach dem Transfer erhoben. Dazu wurden sowohl die Häufigkeit als auch die durchschnittliche Dauer körperlicher Aktivität pro Woche und Aktivität in Sportvereinen erfragt.

Die Ergebnisse der Studienkohorte wurden mit den Ergebnissen der Studie zur Gesundheit Erwachsener in Deutschland (DEGS1) (130) verglichen. Dabei wurde verglichen, welcher Anteil der jeweiligen Kohorten die WHO-Empfehlungen zu körperlicher Aktivität (131) erfüllte.

3.3.3 Soziale Outcomes

3.3.3.1 Behandlungszufriedenheit

Als sekundärer Endpunkt der Studie wurde die Behandlungszufriedenheit erhoben. Dazu wurden Transition-spezifische Items der Behandlungszufriedenheit herangezogen, die sich sowohl auf die Behandlung vor als auch nach dem Transfer bezogen. Diese wurden jeweils auf einer Visuellen Analogskala von 0 (geringste) bis 10 (höchste Zufriedenheit) bewertet.

Im initialen Fragebogen wurden folgende Items bezüglich der Behandlung vor dem Transfer abgefragt:

- Pädiatrische Behandlung allgemein
- Vorbereitung auf den Transfer
- Jugendsprechstunde allgemein

In der telefonischen Nacherhebung wurden weitere Items abgefragt, die noch spezifischer auf bestimmte Bestandteile der Jugendsprechstunde abzielten:

- Information über Alkohol, Nikotin und andere Drogen im Krankheitskontext
- Information über Sexualität, Verhütung und Familienplanung im Krankheitskontext
- Umgang mit individuellen Fragen
- Einbindung in Entscheidungsfindung
- Krankheitswissen
- Therapiewissen
- Selbstmanagement

Bezüglich der Behandlung nach dem Transfer wurden folgende Items abgefragt:

- Internistische Behandlung allgemein
- Wartezeit auf einen Termin
- Wartezeit vor Ort
- Arzt-Patienten-Interaktion
- Verordnung zusätzlicher Behandlungsmöglichkeiten

Dabei wurde aufgrund der zu erwartenden Unterschiede in der Zeitspanne zwischen Transfer und Studienteilnahme darauf hingewiesen, dass diese Fragen explizit hinsichtlich der ersten zwölf Monate nach dem Transfer beantwortet werden sollten.

Die Antworten auf der Papierform des Fragebogens wurden auf der VAS auf eine Dezimalstelle ausgemessen. In der Online-Version wurde die VAS als Schieberegler implementiert, der von Teilnehmenden auf der Skala individuell zwischen 0 und 10 verschoben werden konnte und beim Datenexport in Zahlenwerte übersetzt wurde.

Für die Auswertung wurden die Antworten in Anlehnung an Stringer et al. (114) in drei Kategorien eingeteilt:

- niedrige Zufriedenheit (< 5)
- mäßige Zufriedenheit (≥ 5 und ≤ 7)
- hohe Zufriedenheit (> 7).

3.3.3.2 Sonstige soziale Outcomes

Darüber hinaus wurde die Beziehung der Erkrankung zu folgenden sozialen Faktoren untersucht:

- Einfluss der Corona-Pandemie auf die persönliche Lebenssituation mittels fünfstufiger Likert-Skala
 - Diese Frage wurde gestellt, da die Datenerhebung im ersten Jahr der Corona-Pandemie stattfand, die mit Lockdown, Homeoffice und weiteren Veränderungen einherging, sodass Auswirkungen auf die persönliche Lebenssituation zu erwarten waren und ein möglicher Effekt auf die Langzeit-Outcomes ausgeschlossen werden musste.
- Beziehung zwischen Erkrankung und sozialem Umfeld
 - Auswirkungen der Erkrankung auf die persönlichen Beziehungen mittels dreistufiger Likert-Skala
 - Unterstützung im Umgang mit der Erkrankung aus dem sozialen Umfeld mittels Ja-Nein-Frage
- Beziehung zwischen Erkrankung und Freizeit bzw. Beruf, jeweils mittels Ja-Nein-Frage
 - Auswirkungen der Erkrankung auf die Freizeitaktivitäten
 - Auswirkungen der Erkrankung auf die Berufswahl
 - Unterstützung bei der Berufswahl aus dem sozialen Umfeld
- Arzt-Patienten-Beziehung nach dem Transfer, jeweils mittels Ja-Nein-Frage
 - Zeit für Fragen
 - verständliche Antworten
 - Gefühl, ernst genommen zu werden

- Partizipation in der Entscheidungsfindung

3.3.4 Outcomes im Gesundheitswesen

3.3.4.1 Behandlungskontinuität

Teilnehmende gaben Auskunft über folgende Aspekte der Behandlungskontinuität:

- Setting und Frequenz der Weiterbehandlung inklusive Angabe von Gründen für eine ausgebliebene Weiterbehandlung
- Zeitspanne zwischen letztem Termin im TTP und erstem Termin in der internistischen Weiterbehandlung, ausschließlich bei Patienten, die in der MED weiterbetreut wurden, wodurch die Termine im innerklinischen Dokumentationssystem ersichtlich waren
- Behandlungsabbrüche nach initialer Weiterbehandlung inklusive Angabe von Gründen für Abbrüche
- Änderungen der Diagnose nach dem Transfer
- Änderungen der medikamentösen Therapie inklusive Angabe von Gründen für eine Beendigung
- Sonstige Weiterbehandlung nach dem Transfer

Im Anschluss wurden Patienten danach gruppiert, ob eine Weiterbehandlung stattgefunden hatte oder nicht und im Vergleich der beiden Gruppen nach Unterschieden gesucht, die als Begründung für die ausgebliebene Weiterbehandlung infrage kamen.

3.3.4.2 Vermeidung von unnötigen Krankenhausaufenthalten

Die Anzahl von und die Gründe für Hospitalisierungen nach dem Transfer wurden anhand von Patientenberichten erfasst.

3.3.4.3 Inanspruchnahme von Versorgungsangeboten

Die Inanspruchnahme der interdisziplinären Versorgungsangebote im Rahmen des TTP wurde anhand folgender Parameter erfasst:

- Alter beim ersten Termin in der Jugendsprechstunde (ARDIS)
- Alter beim letzten Termin in der Jugendsprechstunde (ARDIS)
- Dauer der Behandlung in der Jugendsprechstunde (ARDIS)
- Anzahl der Termine in der Jugendsprechstunde (ARDIS)

- Absolute und relative Häufigkeit der Inanspruchnahme weiterführender Angebote im Rahmen des TTP:
 - o Psychosozialer Dienst
 - o Klinikschule
 - o Krankheitsbezogene Schulungen
 - o Transitions-camp
 - o Physiotherapie

3.4 Statistische Auswertung

Im Vorfeld der Studie fand eine statistische Beratung durch das Center for Pediatric Clinical Studies (CPCS) und das Deutsche Rheuma-Forschungszentrum (DRFZ) statt.

Die erhobenen Daten wurden im Programm Microsoft Excel für Mac gesammelt und kodiert. Dabei wurden Ja-Nein-Fragen mit 0 (nein) und 1 (ja) kodiert. Die medikamentöse Therapie wurde folgendermaßen kodiert:

- 0: keine Therapie
- 1: NSAR als Bedarfsmedikation
- 2: NSAR als Dauermedikation
- 3: Basistherapie (Methotrexat, Sulfasalazin, Azathioprin, Chloroquin, Colchicin)
- 4: Biologika, JAK-Inhibitoren, alle Kombinationstherapien, die solche enthalten
- 5: Steroide, alle Kombinationstherapien, die solche enthalten

Die Daten wurden mit dem Programm IBM SPSS Statistics deskriptiv ausgewertet, dabei wurden Mittelwerte, Mediane und Häufigkeiten berechnet.

Die Ergebnisse der Einzelskalen und die Index-Werte des EQ-5D-5L wurden mit Durchschnittswerten der entsprechenden Altersgruppe der deutschen Bevölkerung verglichen und mittels Chi-Quadrat-Test auf signifikante Unterschiede untersucht.

Anschließend wurden die Daten explorativ ausgewertet und auf Korrelationen zwischen demographischen bzw. klinischen Variablen mit der HR-QoL und der Behandlungszufriedenheit untersucht. Hierbei wurden je nach Skalenniveau der unabhängigen Variablen der Eta-Koeffizient, der Spearman-Korrelationskoeffizient oder Kendalls Tau berechnet, sowie lineare Regressionsanalysen durchgeführt. Für alle Tests wurde ein Signifikanzniveau von $p < 0,05$ festgelegt.

4 Ergebnisse

Die nachfolgenden Ergebnisse wurden in Teilen bereits vorab publiziert (132).

4.1 Scoping Review und Entwicklung des Fragebogens

Im Scoping Review wurden folgende Kriterien und Outcomes für eine erfolgreiche Transition identifiziert:

- Lebensqualität, Inanspruchnahme von Versorgungsangeboten, Behandlungszufriedenheit, Selbstmanagement, Krankheitswissen, Therapiewissen, Behandlungskontinuität, Vermeidung unnötiger Krankenhausaufenthalte, Arzt-Patienten-Beziehung in der Erwachsenenbehandlung, soziales Netzwerk.

Daraus wurde in einem iterativen Prozess ein standardisierter Fragebogen entwickelt. Dieser wurde am 04.08.2020 an 295 Patienten verschickt, die nach einem initialen Screening die Einschlusskriterien erfüllten.

4.2 Demographische und klinische Daten

Insgesamt nahmen 85 ehemalige Patienten an der Studie teil, was einen Rücklauf von 28,81% ergibt. Die Mehrheit (55,3%; 47/85) schickte einen schriftlich ausgefüllten Fragebogen ein. Tabelle 5 schlüsselt genauer auf, wie viele Patienten jeweils nach der initialen Kontaktaufnahme, der ersten und der zweiten Erinnerung teilnahmen.

| Zeitpunkt der Teilnahme | Teilnahmen schriftlich, n (%) | Teilnahmen online, n (%) |
|---------------------------|-------------------------------|--------------------------|
| Initiale Studieneinladung | 16 (18,8) | 28 (33,0) |
| Schriftliche Erinnerung | 27 (31,8) | 7 (8,2) |
| Telefonische Erinnerung | 4 (4,7) | 3 (3,5) |

Tabelle 5: Detaillierte Aufstellung der Häufigkeiten von Studienteilnahmen unterteilt nach Zeitpunkt und Methode

43 Teilnehmende (50,6%) erklärten ihr freiwilliges Einverständnis für eine weitere Kontaktaufnahme, von denen letztlich 81,4% (35/43) an der Nachbefragung teilnahmen.

| Variable | Ergebnis |
|---|--------------------|
| Alter (Jahre), Median (Spannweite) | 24,1 (19,1 – 40,5) |
| Zeit seit dem Transfer (Jahre), Median (Spannweite) | 6,0 (0,1 – 16,4) |
| Zeit zwischen TTP und Weiterbetreuung (Tage), Median (Spannweite) | 128 (13 – 983) |

| | |
|---|-----------------------|
| Geschlecht, m : w (%) | 25 : 60 (29,4 : 70,6) |
| Diagnose, n (%) | |
| JIA insgesamt | 60 (70,6) |
| sJIA | 2 (2,4) |
| OA (extended) | 3 (3,5) |
| OA (persistent) | 10 (11,8) |
| PA (seronegativ) | 23 (27,1) |
| EAA | 14 (16,5) |
| Psoriasisarthritis | 5 (5,9) |
| Sonstige JIA | 3 (3,5) |
| Autoinflammatorische Erkrankung | 6 (7,1) |
| Kollagenose | 8 (9,4) |
| Sonstige | 11 (12,9) |
| PGA zum Zeitpunkt des letzten Termins in der Jugendsprechstunde | |
| Mittelwert (Standardabweichung) | 1,01 (1,15) |
| Median (Spannweite) | 1 (0 – 5) |
| PGA = 0, n (%) | 33 (38,8) |
| PGA = 1, n (%) | 32 (37,6) |
| PGA = 2, n (%) | 12 (14,1) |
| PGA = 3, n (%) | 4 (4,7) |
| PGA = 4, n (%) | 2 (2,4) |
| PGA = 5, n (%) | 2 (2,4) |
| Medikamentöse Therapie zum Zeitpunkt des Transfers, n (%) | |
| keine | 23 (27,0) |
| NSAR (Bedarfsmedikation) | 2 (2,4) |
| NSAR (Dauermedikation) | 5 (5,9) |
| Basistherapie | 24 (28,2) |
| Biologika und JAK-inhibitoren | 28 (32,9) |
| Steroide | 2 (2,4) |
| Fehlend | 1 (1,2) |
| Schulabschluss, n (%) | |
| Hauptschule | 8 (9,4) |
| Mittlere Reife | 11 (12,9) |
| Fachhochschulreife | 9 (10,6) |
| Abitur | 56 (65,9) |
| Sonstige | 1 (1,2) |
| Abgeschlossene Berufsausbildung, n (%) | |
| Ja | 49 (57,6) |
| Nein | 36 (42,4) |
| Berufstätigkeit, n (%) | |
| Ja | 47 (55,3) |
| Nein | 34 (40,0) |
| Fehlend | 4 (4,7) |
| Familienstand, n (%) | |
| Ledig | 74 (87,1) |
| Verheiratet | 9 (10,6) |
| Sonstige | 2 (2,4) |
| Wohnsituation, n (%) | |
| Alleine | 21 (24,7) |
| Bei den Eltern | 31 (36,5) |
| Wohngemeinschaft | 11 (12,9) |
| Mit Partner*In oder Familie | 18 (21,2) |
| Sonstige | 3 (3,5) |
| Fehlend | 1 (1,2) |
| Antrag auf Schwerbehinderten-Ausweis, n (%) | |
| Ja | 24 (28,2) |
| Nein | 61 (71,8) |

Tabelle 6: Demographische und klinische Daten der Studienkohorte

Dargestellt sind absolute und relative Häufigkeiten, sowie Mediane und Mittelwerte von relevanten demographischen und klinischen Parametern. Die Tabelle ist angelehnt an Table 1 aus (132).

70,6% (60/85) der Teilnehmenden waren weiblich, das mediane Alter lag bei 24,1 Jahren (19,1 - 40,5). Die JIA war mit 76,5% (60/85) die häufigste Diagnose. Darunter war die seronegative PA (27,1%; 23/85) am stärksten vertreten. Bei 6 Teilnehmenden (7,1%) wurde ein AIS, bei 8 weiteren (9,4%) eine Kollagenose diagnostiziert. Unter den sonstigen war die chronische Osteomyelitis die häufigste Diagnose. 65,9% (56/85) erlangten die allgemeine Hochschulreife. Über die Hälfte (57,6%; 49/85) hatte eine Berufsausbildung abgeschlossen, wovon 95,9% (47/49) aktuell berufstätig waren. Ein Drittel (36,5%; 31/85) wohnte zum Studienzeitpunkt noch im Elternhaus. 28,2% (24/85) gaben an, einen Schwerbehinderten-Ausweis beantragt zu haben.

| Variable | Teilnehmende insgesamt | Teilnehmende Nachbefragung | Nicht-Teilnehmende |
|---|------------------------|----------------------------|--------------------|
| n | 85 | 35 | 210 |
| Alter in Jahren, Median (Spannweite) | 24,1 (19,1–40,5) | 24,6 (19,1–40,5) | 26,4 (18,5–40,2) * |
| Geschlecht m:w, n (%) | 25:60 (29,4:70,6) | 9:26 (25,7:74,3) | 65:145 (30,9:69,1) |
| <u>Diagnose zum Transferzeitpunkt, n (%)</u> | | | |
| JIA, systemisch | 2 (2,4) | 2 (5,7) | 7 (3,3) |
| JIA, Oligoarthritis (extended) | 3 (3,5) | 3 (8,6) | 10 (4,8) |
| JIA, Oligoarthritis (persistent) | 10 (11,8) | 4 (11,4) | 24 (11,4) |
| JIA, Polyarthritis (RF-negativ) | 23 (27,1) | 9 (25,7) | 22 (10,5) * |
| JIA, Enthesitis-assoziiert | 14 (16,5) | 4 (11,4) | 20 (9,6) |
| JIA, Psoriasisarthritis | 5 (5,9) | 3 (8,6) | 11 (5,2) |
| JIA, sonstige | 3 (3,5) | 1 (2,9) | 13 (6,2) |
| Autoinflammatorische Erkrankungen | 6 (7,1) | 2 (5,7) | 32 (15,2) * |
| Kollagenosen | 8 (9,4) | 4 (11,4) | 31 (14,8) * |
| Sonstige | 11 (12,9) | 3 (8,6) | 40 (19,0) |
| <u>Medikamentöse Therapie zum Transferzeitpunkt, n (%)</u> | | | |
| keine | 23 (27,0) | 10 (28,5) | 59 (28,2) |
| NSAR (Bedarfsmedikation) | 2 (2,4) | 1 (2,9) | 9 (4,3) |
| NSAR (Dauermedikation) | 5 (5,9) | 3 (8,5) | 20 (9,5) |
| Basistherapie | 24 (28,2) | 7 (20,0) | 62 (29,5) |
| Biologika und JAK-Inhibitoren | 28 (32,9) | 12 (34,3) | 45 (21,4) |
| Steroide | 2 (2,4) | 1 (2,9) | 15 (7,1) |
| Fehlend | 1 (1,2) | 1 (2,9) | 0 (0,0) |
| <u>PGA zum Transferzeitpunkt, Mittelwert (SD)</u> | 1,01 (1,15) | 0,941 (0,20) | 1,30 (1,67) * |
| <u>Inanspruchnahme des TTP</u> | | | |
| Alter beim ersten TTP-Termin in Jahren, Median (Spannweite) | 15,2 (11,2–18,7) | 15,7 (11,2–18,7) | 15,4 (11,1–22,1) |
| Alter bei Transfer in Jahren, Median (Spannweite) | 18,5 (17,0–20,7) | 18,7 (17,0–20,7) | 18,5 (17,0–24,7) |
| Behandlungsdauer im TTP in Jahren, Median (Spannweite) | 3,4 (0,4–7,1) | 3,4 (0,4–7,1) | 3,3 (0,3–10,0) |
| Anzahl der Termine im TTP, Median (Spannweite) | 7,0 (2–18) | 7,0 (2–17) | 6,0 (2–17) |

Tabelle 7: Vergleich der Kohorten hinsichtlich klinischer Parameter und Demographie

Dargestellt sind relevante demographische und klinische Aspekte der unterschiedlichen Kohorten.

** signifikante Unterschiede zwischen Studienkohorte insgesamt und Kohorte der Nicht-Teilnehmenden in t-Tests bei einem Signifikanzniveau $p < 0,05$.*

Im Vergleich zur Kohorte der Nicht-Teilnehmenden war die Studienkohorte im Durchschnitt signifikant jünger (24,1 vs. 26,4 Jahre) und hatte zum Zeitpunkt der Überweisung einen niedrigeren durchschnittlichen PGA-Score (1,01 vs. 1,30).

Teilnehmende hatten häufiger eine seronegative PA, während AIS und Kollagenosen bei den Nicht-Teilnehmenden häufiger auftraten.

4.3 Individuelle Outcomes

4.3.1 Gesundheitsbezogene Lebensqualität

4.3.1.1 Einzelkategorien des EQ-5D-5L

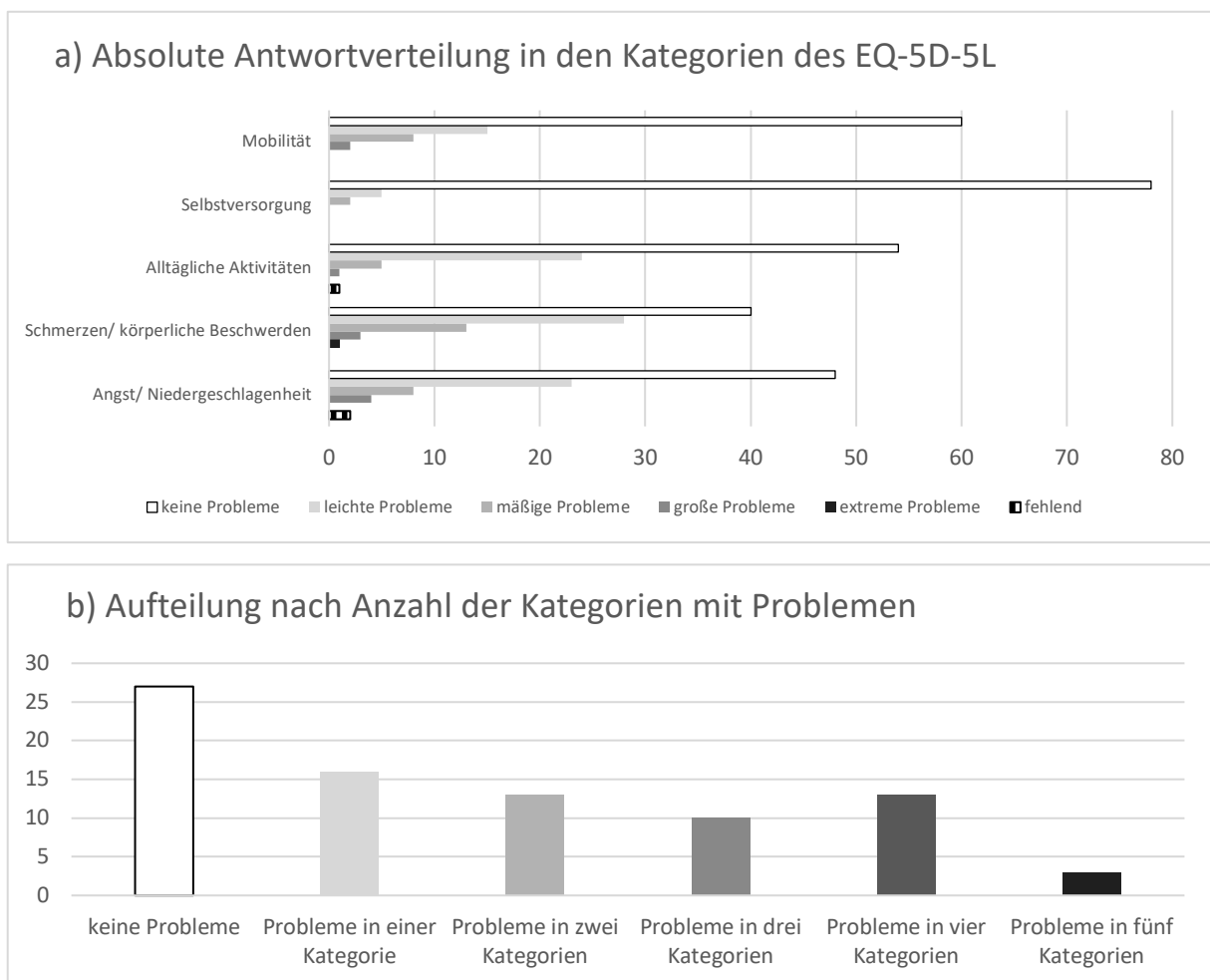


Abbildung 1: Gesundheitsbezogene Lebensqualität

a) Absolute Häufigkeiten der einzelnen Antworten (siehe Legende unterhalb des Diagramms) in der jeweiligen Kategorie des EQ-5D-5L (siehe Achsenbeschriftung links).

b) Absolute Häufigkeiten der Patienten aufgeteilt nach der Anzahl an Kategorien des EQ-5D-5L in denen sie Probleme angegeben hatten. n=82 bei 3 fehlenden Werten.

In jeder Kategorie des EQ-5D-5L gab die Mehrheit keine Probleme an (Mobilität: 70,6%; Selbstversorgung: 91,8%; alltägliche Tätigkeiten: 64,3%; Schmerzen/ körperliche Beschwerden: 47,1%; Angst/Niedergeschlagenheit: 57,8%). Bei

„Schmerzen/körperliche Beschwerden“ und „Angst/Niedergeschlagenheit“ wurden am häufigsten große oder extreme Probleme angegeben, was zu den höchsten Mittelwerten der Kategorien führte (Mobilität: $1,44 \pm 0,76$; Selbstversorgung: $1,11 \pm 0,38$; alltägliche Tätigkeiten: $1,44 \pm 0,67$; Schmerzen/körperliche Beschwerden: $1,79 \pm 0,91$; Angst/Niedergeschlagenheit: $1,61 \pm 0,85$).

Trotz der hohen relativen Häufigkeit der Antwort „keine Probleme“ berichteten etwa zwei Drittel (64,7%; 55/85) von Problemen in mindestens einer Kategorie. 13 Teilnehmende (15,3%) gaben Probleme in vier verschiedenen, drei (3,5%) in fünf Kategorien an. Die erhobenen Daten der letzteren wurden daher genauer untersucht.

Person A wurde mit einer EAA diagnostiziert und nach überdurchschnittlich langer Behandlung im TTP (5,0 Jahre) im Januar 2018 im Alter von 20 Jahren mit relativ hoher Krankheitsaktivität (PGA 4) transferiert. Bei der Befragung gab sie extreme Schmerzen, große Probleme beim Gehen, bei alltäglichen Tätigkeiten und mit Angst an. Die heutige gesundheitliche Verfassung wurde unter Angabe von starken Rückenschmerzen mit 5 von 100 bewertet. Eine Weiterbetreuung finde nicht statt, da sie in der weiterbehandelnden Institution nach dem Transfer abgelehnt worden sei. Sie nehme jedoch unverändert NSAR als Basismedikation.

Person B wurde mit einer RF- PA diagnostiziert. Sie wies zum Zeitpunkt des Transfers im April 2007 mit 18 Jahren keine Krankheitsaktivität mehr auf (PGA 0). Zum Studienzeitpunkt gab sie in allen Kategorien leichte Probleme an, sowie eine heutige gesundheitliche Verfassung von 80. Eine Weiterbetreuung finde halbjährlich in der MED statt. Dort sei in der Zwischenzeit eine Therapie-Eskalation vollzogen worden.

Person C wurde mit einer nicht näher definierten Vaskulitis diagnostiziert und nach nur zwei Terminen im TTP im Juli 2011 im Alter von 18 Jahren mit minimaler Krankheitsaktivität (PGA 1) transferiert. Sie gab mäßige Probleme beim Gehen, der Selbstversorgung und bei alltäglichen Tätigkeiten, sowie starke Schmerzen und Angst bei einer heutigen gesundheitlichen Verfassung von 33 an. Darüber hinaus habe sie während der Corona-Pandemie erstmalig eine depressive Episode gehabt. Sie werde immer noch vierteljährlich in der MED weiterbetreut, wo die medikamentöse Therapie auf ihren Wunsch hin beendet worden sei.

4.3.1.2 Index-Value des EQ-5D-5L

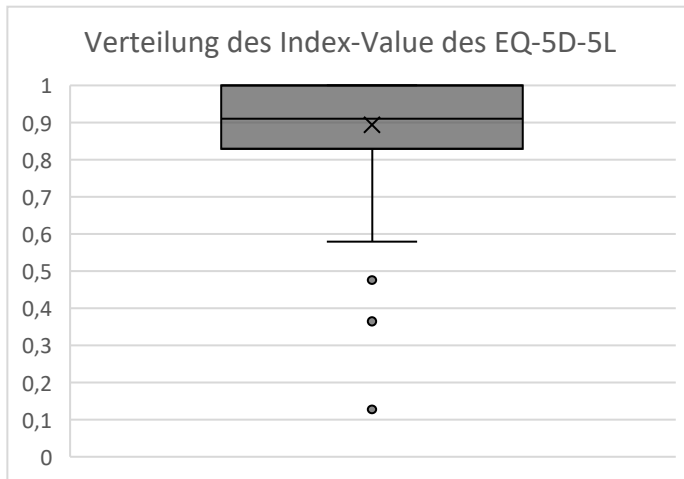


Abbildung 2: Verteilung der Gesundheitsbezogenen Lebensqualität in der Studienkohorte anhand des EQ-5D-5L-Index

Dargestellt ist die Verteilung der Index-Werte, die für die einzelnen Teilnehmenden aus den Antworten in den fünf Kategorien errechnet wurden. Dabei steht 1,000 für die optimale HR-QoL.

In der Studienkohorte ergab sich ein mittlerer Index-Wert von 0,894 (\pm 0,149), der Median lag bei 0,910 (0,127 – 1,000). Bei den drei abgebildeten Ausreißern handelt es sich um die Personen, die unter 4.3.1.1 ausführlicher beschrieben wurden.

4.3.1.3 EQ VAS zur heutigen gesundheitlichen Verfassung

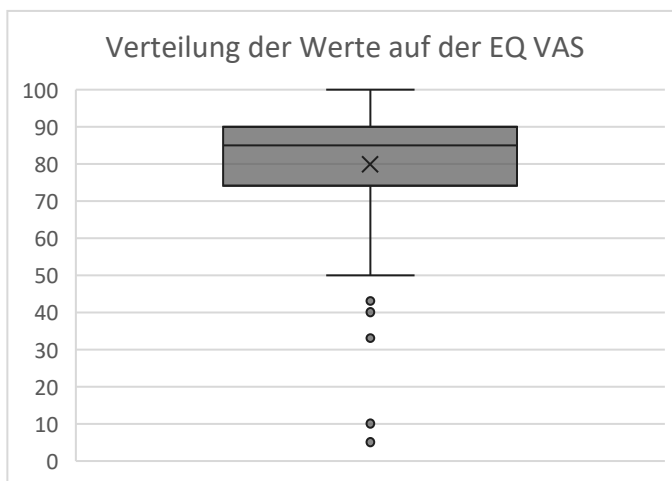


Abbildung 3: Heutige gesundheitliche Verfassung auf der EQ VAS (0 – 100)

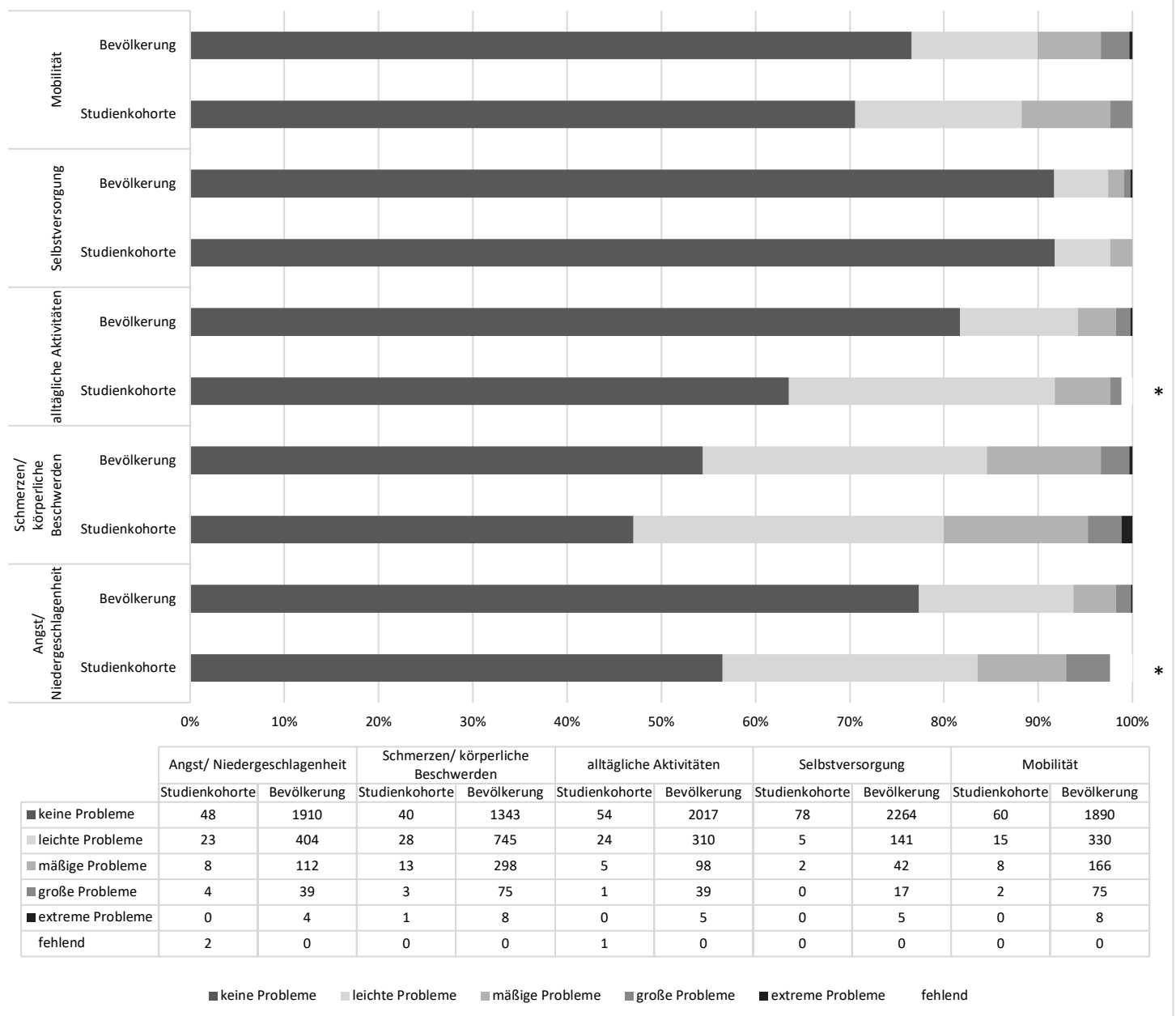
Dargestellt sind die Ergebnisse der Studienkohorte für die auf der VAS zur heutigen gesundheitlichen Verfassung, wobei hohe Werte eine bessere gesundheitliche Verfassung anzeigen.

Im Mittel gaben die Befragten eine heutige gesundheitliche Verfassung von 79,8 (\pm 19,0) an. Es zeigte sich eine breite Verteilung bei zwei Ausreißern mit schlechter gesundheitlicher Verfassung, deren Daten genauer untersucht wurden.

Der niedrigste Wert wurde von Person A angegeben, die unter 4.3.1.1 genauer beschrieben wurde. Person D wurde mit der Arbeitsdiagnose Arthralgie und mehreren rheumatologischen Nebendiagnosen 3,1 Jahre im TTP betreut und im Juni 2019 in Remission (PGA 0) transferiert. Sie gab außer leichten Problemen beim Gehen und leichten Schmerzen keine weiteren Beschwerden an. Eine Weiterbetreuung sei aufgrund von Beschwerdefreiheit nicht in Anspruch genommen worden.

4.3.1.4 Vergleich der HR-QoL in der Studienkohorte mit der deutschen Bevölkerung

a) Vergleich der Kategorien des EQ-5D-5L zwischen Studienkohorte und Bevölkerung



b) Vergleich der gesundheitlichen Verfassung zwischen Studienkohorte und Bevölkerung

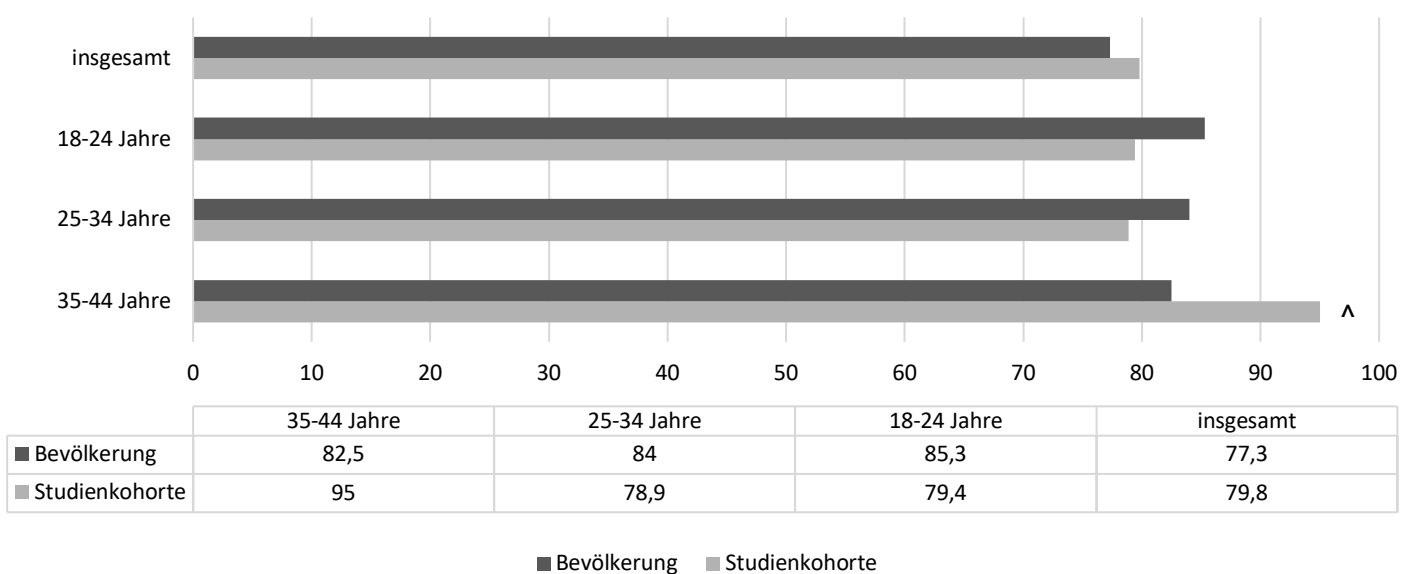


Abbildung 4: HR-QoL der Studienkohorte im Vergleich mit der deutschen Bevölkerung

a) Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Antworten auf die fünf Kategorien des EQ-5D-5L der Studienkohorte ($n = 85$) im direkten Vergleich zu Werten einer repräsentativen Studie zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität in der deutschen Bevölkerung ($n = 2469$) (129). * In diesen Kategorien zeigten sich signifikante Unterschiede zwischen der Studienkohorte und der deutschen Bevölkerung.

b) Dargestellt sind die Durchschnittswerte der Studienkohorte auf der EQ VAS zur heutigen gesundheitlichen Verfassung im direkten Vergleich mit den Durchschnittswerten der deutschen Bevölkerung aufgeteilt nach den angegebenen Altersgruppen (133). ^ Diese Altersgruppe war in der Studienkohorte nur mit 3 Teilnehmern vertreten.

Die Abbildung ist angelehnt an Figure 1 aus (132).

Im Vergleich mit durchschnittlichen Werten der deutschen Bevölkerung (129) zeigte die Studienkohorte schlechtere Ergebnisse in vier der fünf Kategorien des EQ-5D-5L. Studienteilnehmende gaben signifikant mehr Probleme mit „alltägliche Tätigkeiten“ und „Angst/Niedergeschlagenheit“ an. Hinsichtlich der Fähigkeit zur Selbstversorgung zeigten sich keine Unterschiede.

Auf der VAS zur heutigen gesundheitlichen Verfassung gab die Studienkohorte in den beiden relevanten Altersgruppen (18-24 Jahre: $n = 48$; 25-34 Jahre: $n = 32$) niedrigere Durchschnittswerte an als die deutsche Bevölkerung (133). In der Bevölkerung wurden höhere Altersgruppen mit schlechteren Ergebnissen eingeschlossen, die hier nicht abgebildet wurden, aber in den Durchschnittswert der Gesamtbevölkerung einfließen.

4.3.2 Körperliche Aktivität

4.3.2.1 Frequenz und Dauer körperlicher Aktivität

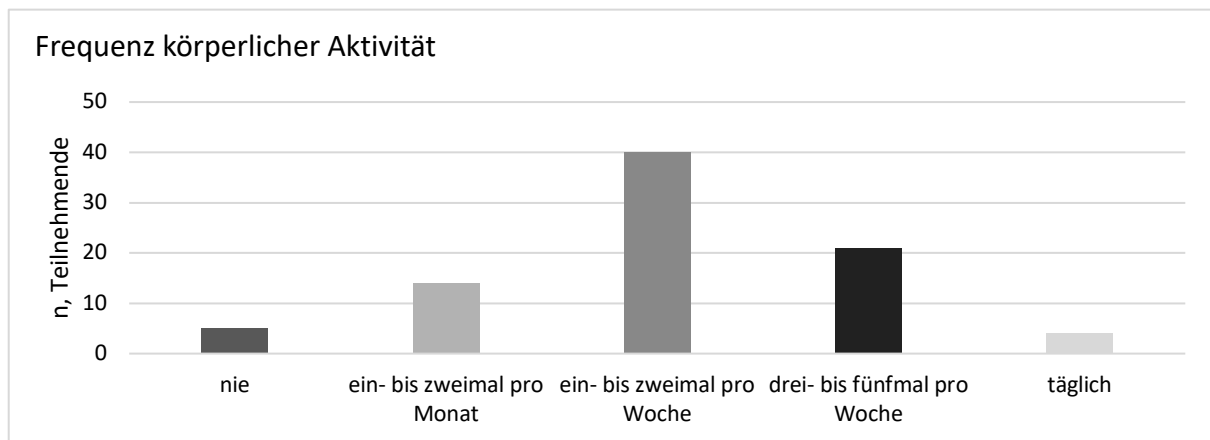


Abbildung 5: Frequenz körperlicher Aktivität in der Studienkohorte

Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der jeweiligen Antworten auf die Frage nach der Frequenz körperlicher Aktivität ($n = 84$; 1 fehlende Antwort). Die Abbildung ist angelehnt an Figure 2a aus (132).

Nur fünf Teilnehmende (5,9%) erklärten, nicht körperlich aktiv zu sein. Drei Viertel der Befragten (76,5%; 65/85) gab an, mindestens ein- bis zweimal pro Woche körperlich aktiv zu sein. Dabei lag die durchschnittliche Dauer von körperlicher Aktivität pro Woche bei 3,44 h ($\pm 2,85$), im Median bei 3 h (Spannweite 0 – 14).

4.3.2.2 Vereinssport

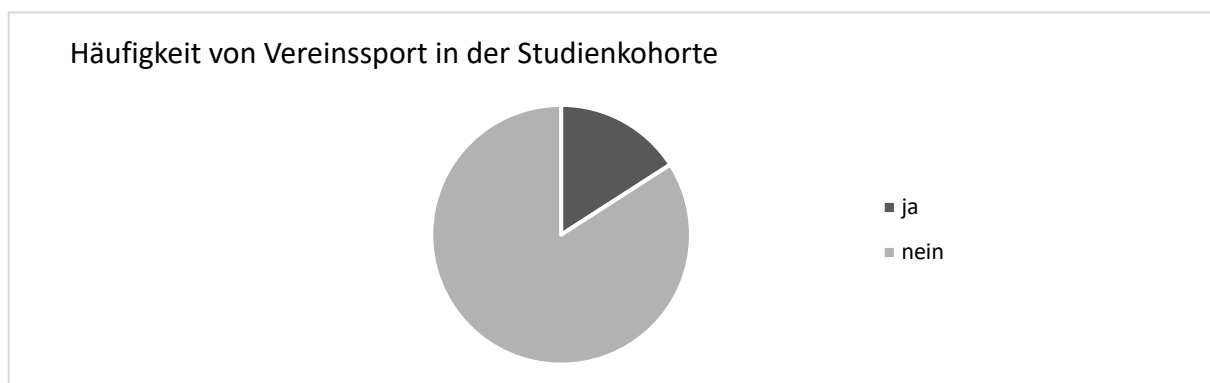


Abbildung 6: Vereinssport in der Studienkohorte

Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der jeweiligen Antworten auf die Frage, ob aktiv Vereinssport betrieben wird ($n = 84$ wegen einer fehlenden Antwort). Die Abbildung ist angelehnt an Figure 2b aus (132).

16,5% der Studienkohorte (14/85) gaben an, zum Studienzeitpunkt aktiv Vereinssport zu betreiben. Die Sportarten, die am häufigsten betrieben wurden, waren Reitsport ($n = 3$), Fußball, Tennis und Leichtathletik (je $n = 2$).

4.3.2.3 Vergleich der körperlichen Aktivität in der Studienkohorte mit der deutschen Bevölkerung

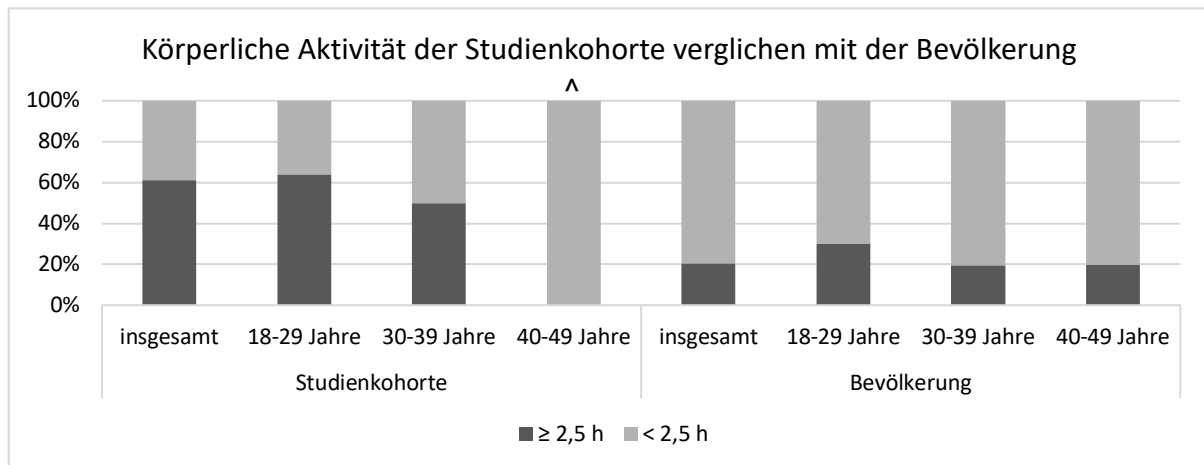


Abbildung 7: Körperliche Aktivität der Studienkohorte im Vergleich mit der Bevölkerung

Dargestellt sind die relativen Häufigkeiten der Befragten, die mindestens 2,5 h pro Woche körperlich aktiv waren. Die Gesamtwerte sowie die Verhältnisse in den relevanten Altersgruppen sind einmal für die Studienkohorte, sowie für die deutsche Bevölkerung dargestellt (130). [^] Diese Altersgruppe war in der Studienkohorte nur mit 1 Teilnehmer vertreten. Die Abbildung ist angelehnt an Figure 2c aus (132).

61,0% der Studienkohorte und 20,4% der Bevölkerung (130) gaben mindestens 2,5 h wöchentliche körperliche Aktivität an. Dieser Unterschied zeigte sich auch in den Altersgruppen 18-29 (64,1% vs. 30,2%) und 30-39 Jahre (50,0% vs. 19,6%).

4.4 Soziale Outcomes

4.4.1 Behandlungszufriedenheit

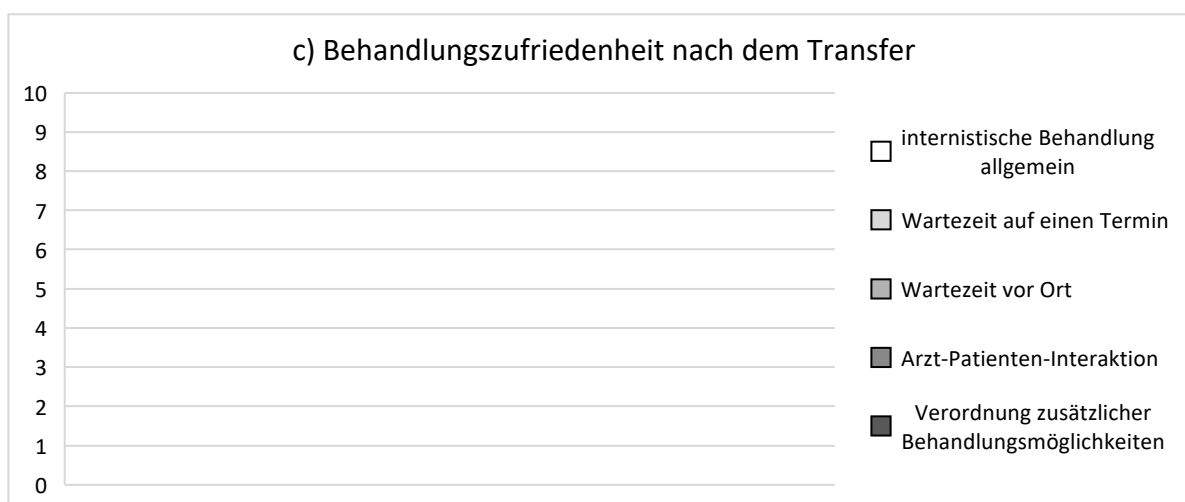
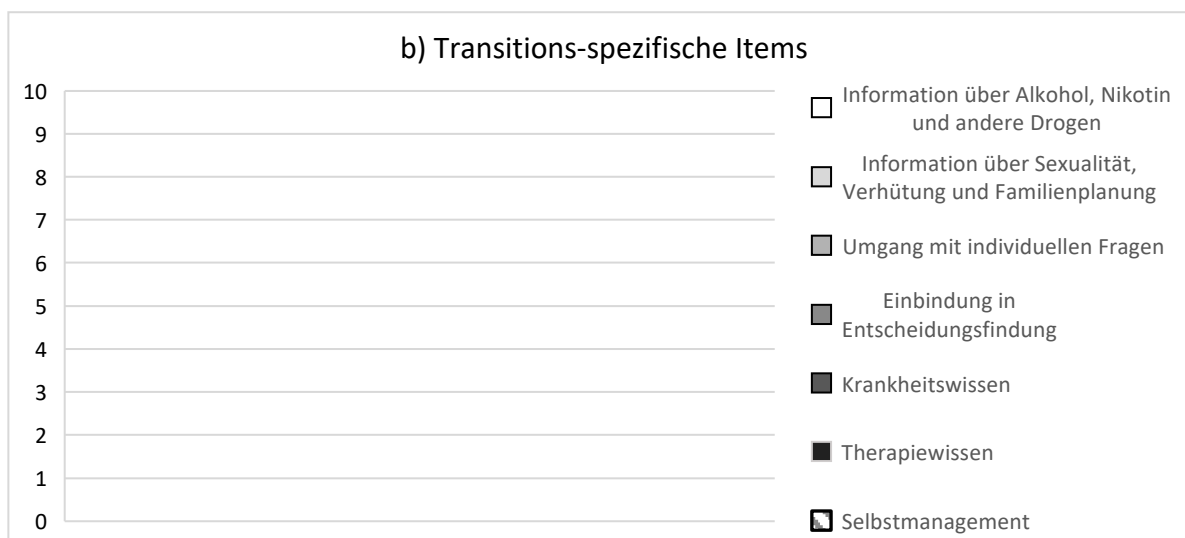
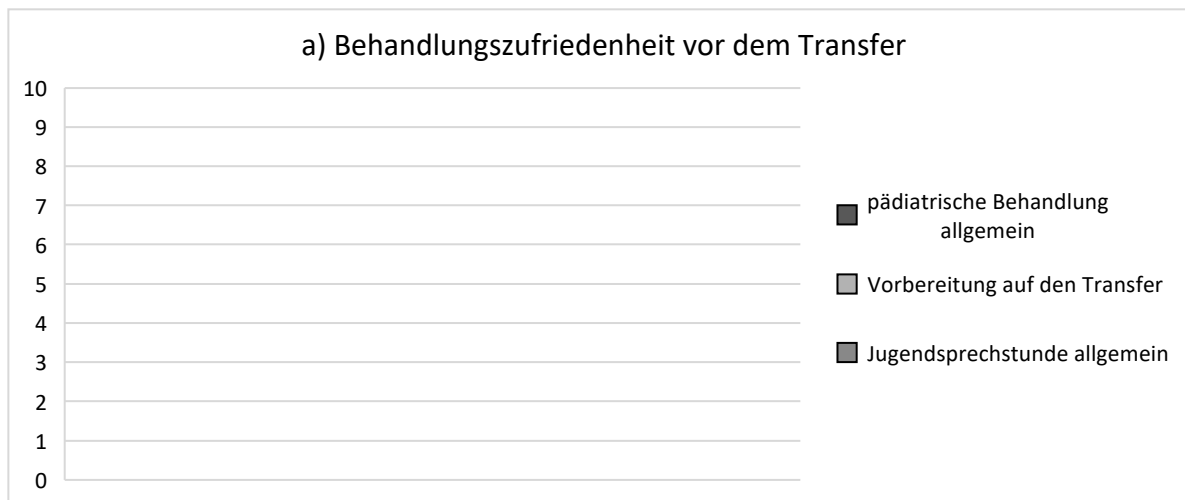


Abbildung 8: Verteilung der Behandlungszufriedenheit der Studienkohorte

Dargestellt ist die Verteilung der Behandlungszufriedenheit der Studienkohorte. Mittelwerte der Studienkohorte sind zusätzlich zu der Darstellung der Mediane und Quartilen im Boxplot mit einem Kreuz markiert. Der Wert 0 markiert die niedrigste, der Wert 10 die höchste Zufriedenheit.

In Teil a) sind speziell die Kategorien der Behandlungszufriedenheit vor dem Transfer dargestellt. Teil b) stellt die Transitions-spezifische Kategorien der Behandlungszufriedenheit dar, nacherhoben wurden. Teil c) stellt die Kategorien der Behandlungszufriedenheit nach dem Transfer dar.

Außer in den Kategorien „Vorbereitung auf den Transfer“ ($6,78 \pm 3,02$), „Information über Alkohol, Nikotin und andere Drogen“ ($6,29 \pm 2,91$) und „Information über Sexualität, Verhütung und Familienplanung“ ($5,38 \pm 2,85$) gaben die Teilnehmenden im Durchschnitt eine hohe Zufriedenheit an. Die höchste Zufriedenheit zeigte sich in den Kategorien „Umgang mit individuellen Fragen“ ($9,03 \pm 1,20$), „Krankheitswissen“ ($8,51 \pm 1,85$) und „Selbstmanagement“ ($8,46 \pm 2,12$). Nach dem Transfer sank die allgemeine Zufriedenheit mit der Behandlung leicht von $8,42 (\pm 1,68)$ auf $7,66 (\pm 2,22)$.

| Zufriedenheit mit... | Mittelwert (SD) | Fehlend n (%) | > 7 n (%) | ≤ 7- ≥ 5 n (%) | < 5 n (%) | n |
|---|-----------------|---------------|-----------|----------------|-----------|----|
| Behandlungskomponenten vor dem Transfer | | | | | | |
| Pädiatrische Behandlung allgemein | 8,42 (1,68) | 1 (1,2) | 71 (83,5) | 11 (12,9) | 2 (2,4) | 85 |
| Vorbereitung auf den Transfer | 6,78 (3,02) | 5 (5,9) | 48 (56,5) | 17 (20,0) | 15 (17,6) | 85 |
| Jugendsprechstunde allgemein | 7,90 (2,55) | 4 (4,7) | 62 (72,9) | 10 (11,8) | 9 (10,6) | 85 |
| Information über Alkohol, Nikotin und andere Drogen im Krankheitskontext | 6,29 (2,91) | 1 (2,9) | 13 (37,1) | 12 (34,3) | 9 (25,7) | 35 |
| Information über Sexualität, Verhütung und Familienplanung im Krankheitskontext | 5,38 (2,85) | 1 (2,9) | 8 (22,8) | 17 (48,6) | 9 (25,7) | 35 |
| Umgang mit individuellen Fragen | 9,03 (1,20) | 0 (0,0) | 30 (85,7) | 5 (14,3) | 0 (0,0) | 35 |
| Einbindung in Entscheidungsfindung | 8,17 (1,89) | 0 (0,0) | 24 (68,6) | 10 (28,6) | 1 (2,8) | 35 |
| Krankheitswissen | 8,51 (1,85) | 0 (0,0) | 27 (77,1) | 6 (17,2) | 2 (5,7) | 35 |
| Therapiewissen | 7,97 (2,07) | 0 (0,0) | 23 (65,7) | 9 (25,7) | 3 (8,6) | 35 |
| Selbstmanagement | 8,46 (2,12) | 0 (0,0) | 29 (82,9) | 4 (11,4) | 2 (5,7) | 35 |
| Behandlungskomponenten nach dem Transfer | | | | | | |
| Internistische Behandlung allgemein | 7,66 (2,22) | 0 (0,0) | 44 (67,7) | 13 (20,0) | 8 (12,3) | 65 |
| Wartezeit auf einen Termin | 7,58 (2,37) | 0 (0,0) | 43 (66,2) | 12 (18,5) | 10 (15,4) | 65 |
| Wartezeit vor Ort | 7,11 (2,50) | 0 (0,0) | 41 (63,1) | 13 (20,0) | 11 (16,9) | 65 |
| Arzt-Patienten-Interaktion | 7,45 (2,63) | 0 (0,0) | 41 (63,1) | 12 (18,5) | 12 (18,5) | 65 |
| Verordnung zusätzlicher Behandlungsmöglichkeiten | 7,75 (3,09) | 6 (9,2) | 43 (66,2) | 8 (12,3) | 8 (12,3) | 65 |

Tabelle 8: Behandlungszufriedenheit mit Gruppierung nach Ausmaß der Zufriedenheit

Dargestellt sind die Mittelwerte der Zufriedenheit sowie die absoluten und relativen Häufigkeiten der Gruppen „hohe“ (> 7), „mäßige“ (≤ 7 & ≥ 5) und „niedrige Zufriedenheit“ (< 5). Es ergeben sich drei unterschiedliche Gesamtsummen (n = 35 in der Nacherhebung; n = 65 bezüglich der Weiterbehandlung). Die Tabelle ist angelehnt an Table 2a aus (132).

In den meisten Kategorien gab die absolute Mehrheit der Befragten eine hohe Zufriedenheit an. Einzig in den Kategorien „Thematisierung von Alkohol, Nikotin und anderen Drogen“ und „Thematisierung von Sexualität, Verhütung und Familienplanung“ gab ein Viertel der Befragten eine niedrige Zufriedenheit an.

4.4.2 Sonstige soziale Outcomes

4.4.2.1 Einfluss der Corona-Pandemie auf die persönliche Lebenssituation

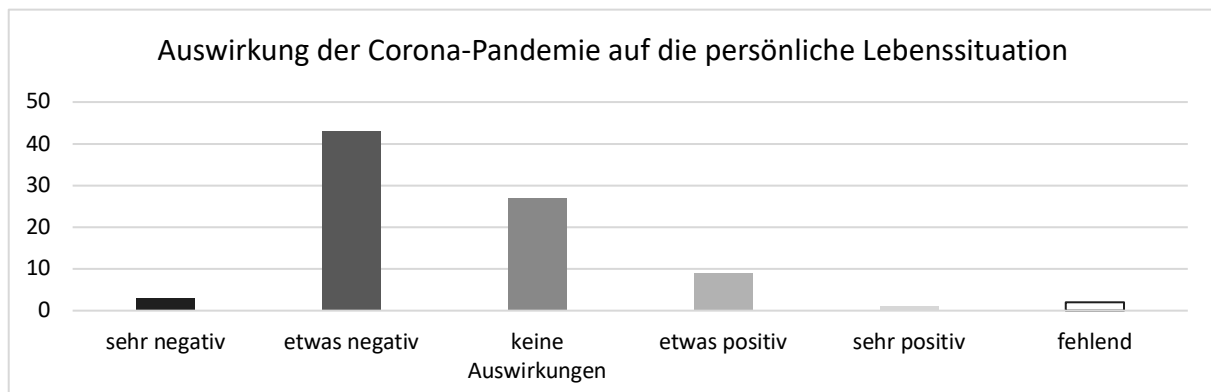


Abbildung 9: Auswirkungen der Corona-Pandemie auf die Lebenssituation der Studienkohorte
Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Antworten auf die Frage nach den Auswirkungen der Corona-Pandemie auf die persönliche Lebenssituation.

Die Mehrheit (54,0%; 46/85) berichtete von negativen Auswirkungen der Corona-Pandemie, darunter 3 Teilnehmende deren Situation sehr negativ beeinflusst wurde. Als Gründe wurden vor allem Kurzarbeit, Homeoffice, Einschränkungen bezüglich sozialer Kontakte und psychische Beschwerden genannt. 10 Befragte (11,8%) berichteten von positiven Auswirkungen wie mehr Zeit und Flexibilität, mehr sportliche Aktivität oder verbesserte Arbeitsbedingungen.

4.4.2.2 Beziehung zwischen Erkrankung und sozialem Umfeld

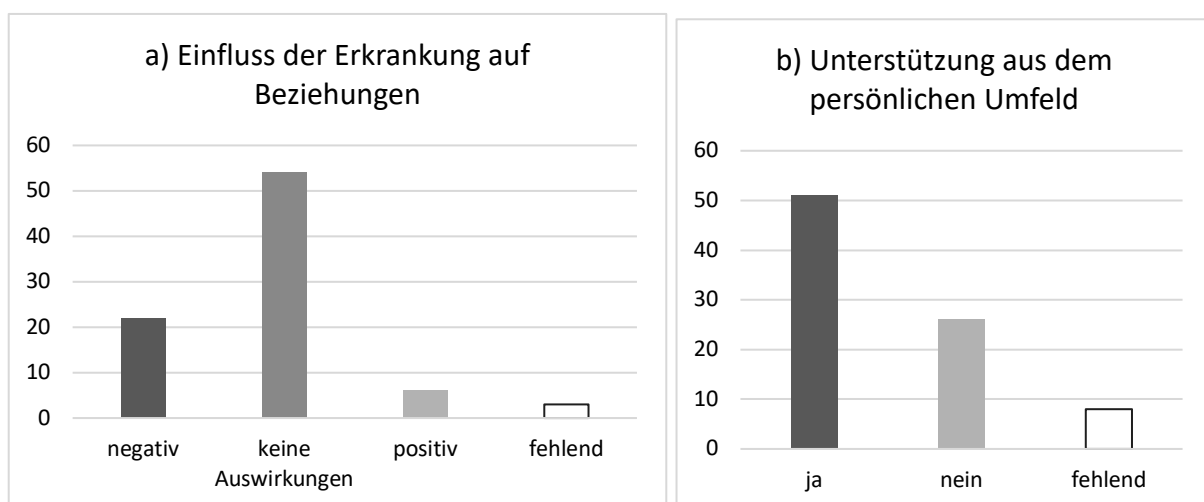


Abbildung 10: Beziehung zwischen Erkrankung und sozialem Umfeld der Studienkohorte

a) Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Befragten, die Auswirkungen ihrer Erkrankung auf persönliche Beziehungen angaben dar. b) Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Befragten, die angaben im Umgang mit der eigenen Erkrankung Unterstützung aus dem persönlichen Umfeld zu erhalten.

Die eigene Erkrankung wirkte sich häufiger negativ (25,9%; 22/85) als positiv (7,1%; 6/85) auf persönliche Beziehungen aus. In den meisten Fällen wurden allerdings keine Auswirkungen angegeben. Fast zwei Drittel der Befragten (60,0%; 51/85) gaben an, bei der Krankheitsbewältigung Unterstützung aus dem persönlichen Umfeld zu bekommen.

4.4.2.3 Beziehung zwischen Erkrankung und Freizeit bzw. Beruf



Abbildung 11: Auswirkungen der Erkrankung auf Freizeitaktivitäten und Berufsleben

a) Dargestellt ist die absolute Häufigkeit der Teilnehmenden, die angaben, dass die Erkrankung Auswirkungen auf Freizeitaktivitäten hatte. b) Dargestellt ist die absolute Häufigkeit der Teilnehmenden, die angaben, dass die Erkrankung Auswirkungen auf die Berufswahl hatte. c) Dargestellt ist die absolute Häufigkeit der Teilnehmenden, die angaben, bei der Berufswahl Hilfe aus dem persönlichen sozialen Umfeld bekommen zu haben.

Die Mehrheit der Befragten gab an, dass die eigene Erkrankung keine Auswirkungen auf Freizeitaktivitäten (78,8%; 67/85) und die Berufswahl (67,1%; 57/85) hatte. Etwa ein Viertel der Teilnehmenden (25,9%; 22/85) berichtete, bei der Berufswahl Unterstützung aus dem persönlichen sozialen Umfeld erhalten zu haben.

4.4.2.4 Arzt-Patienten-Beziehung in der Behandlung nach dem Transfer

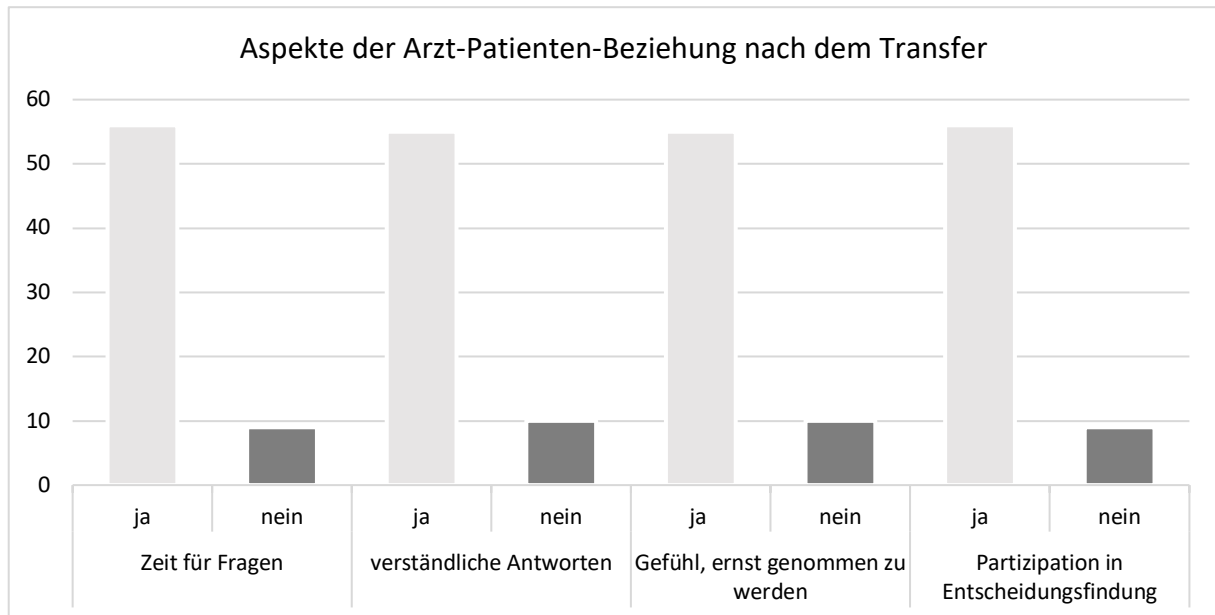


Abbildung 12: Aspekte der Arzt-Patienten-Beziehung nach dem Transfer

Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Antworten auf vier verschiedene Fragen zur Arzt-Patienten-Beziehung nach dem Transfer.

Die Mehrheit der Patienten, die weiterbetreut wurden, gab an, nach dem Transfer genügend Zeit für Fragen zu haben (86,2%; 56/65), verständliche Antworten zu bekommen (84,6%; 55/65), sich ernst genommen zu fühlen (84,6%; 55/65) und angemessen in die Entscheidungsfindung eingebunden zu werden (86,2%; 56/65).

4.5 Outcomes im Gesundheitswesen

4.5.1 Behandlungskontinuität

4.5.1.1 Setting und Frequenz der Weiterbehandlung

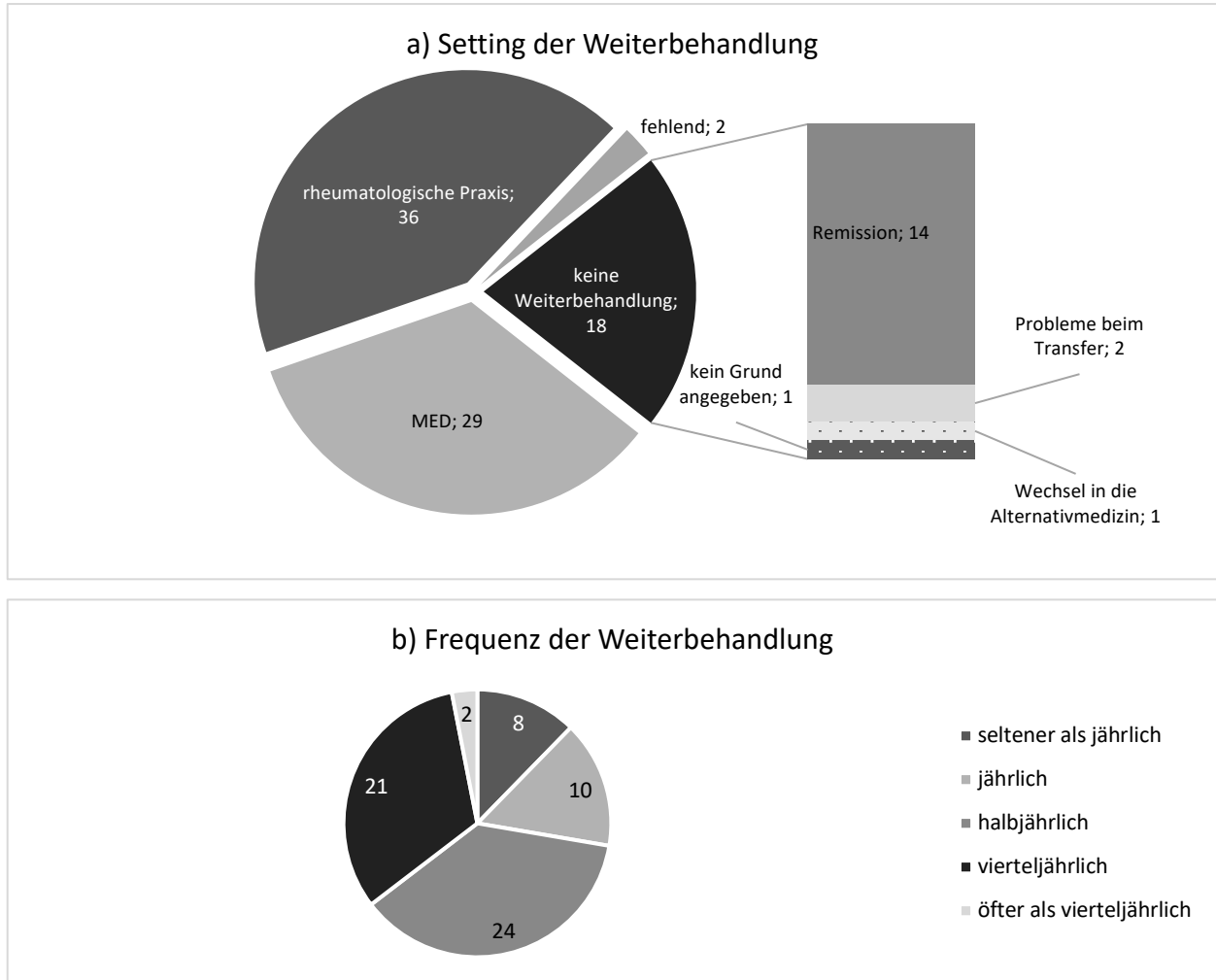


Abbildung 13: Behandlungskontinuität in der Studienkohorte nach dem Transfer

a) Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Teilnehmenden die in der Medizinischen Klinik der Universitätsklinik Tübingen (MED), einer rheumatologischen Praxis oder gar nicht weiterbetreut wurden. Zusätzlich sind die Gründe für das Ausbleiben einer Weiterbehandlung mit absoluter Häufigkeit dargestellt. b) Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Antworten auf die Frage nach der Frequenz der Weiterbehandlung. Hierfür wurden nur die Antworten von Patienten gewertet, die zuvor eine Weiterbehandlung angegeben hatten ($n = 65$). Die Abbildung ist angelehnt an Figure 3a aus (132). 76,5% der Studienkohorte ($65/85$) wurde nach dem Transfer initial weiterbehandelt, die Mehrheit (55,4%; $36/65$) bei niedergelassenen Rheumatologen. Fast drei Viertel der Weiterbehandelten (72,3%; $47/65$) haben mehrere Termine pro Jahr. Im Schnitt verging zwischen dem letzten Termin im TTP und dem ersten Termin in der MED etwa ein halbes Jahr ($188,7 \pm 193,4$ Tage; Median: 128 Tage (13-983)).

18 Teilnehmende (21,2%) gaben an, dass keine Weiterbehandlung stattfand, wobei die Mehrheit (77,8%; 14/18) dies mit dem Erreichen einer Remission begründete. Lediglich zwei Patienten berichteten von Problemen beim Transfer.

Dabei handelte es sich um Person A, die unter 4.3.1.1 ausführlicher beschrieben wurde. Sie gab an, sich in mehreren Einrichtungen vorgestellt zu haben und wegen aktiver Erkrankung unter Medikation abgelehnt worden zu sein. Auffällig war die hohe Zufriedenheit mit der pädiatrischen Behandlung (9,0) und der Jugendsprechstunde (8,0), während die Zufriedenheit mit der Vorbereitung auf den Transfer mit 0,0 bewertet wurde. Person E wurde mit einer EAA diagnostiziert, hatte beim Transfer im Januar 2006 eine Remission erreicht (PGA: 1) und die medikamentöse Therapie im Anschluss selbst beendet. Sie erläuterte die Probleme nicht, gab aber ebenfalls hohe Zufriedenheit mit der pädiatrischen Behandlung (8,6) und der Jugendsprechstunde (8,5) und geringe Zufriedenheit mit der Vorbereitung auf den Transfer (1,0) an.

4.5.1.2 Behandlungsabbrüche nach initialer Weiterbehandlung

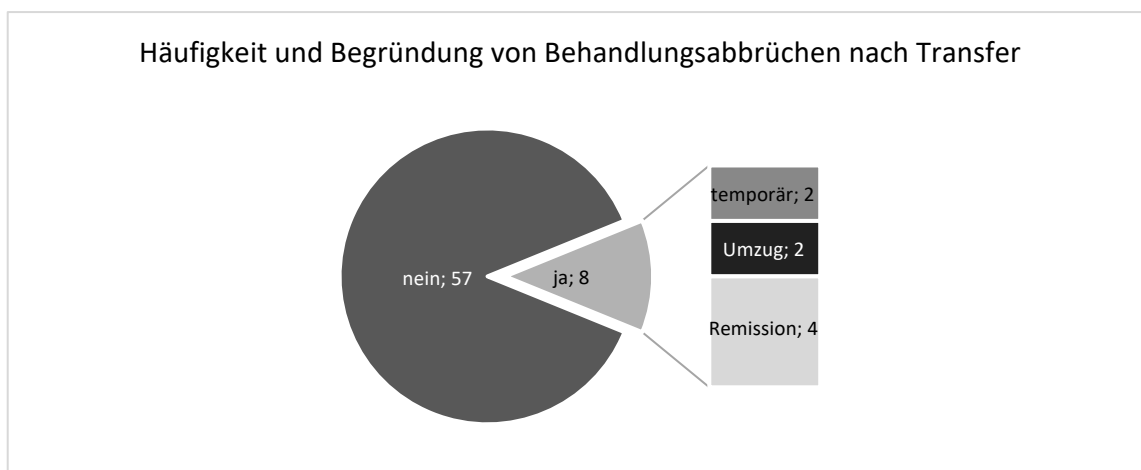


Abbildung 14: Behandlungsabbrüche nach initialer rheumatologischer Weiterbehandlung
Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Behandlungsabbrüche nach initial erfolgreichem Transfer inklusive der jeweils angegebenen Gründe.

Acht Teilnehmende (12,3%; 8/65) gaben an, dass ihre Behandlung temporär unterbrochen wurde, in den meisten Fällen (50%; 4/8) aufgrund einer Remission.

4.5.1.3 Änderungen der Diagnose nach dem Transfer

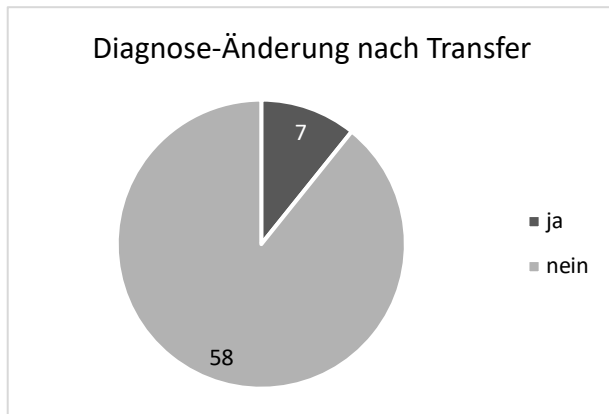


Abbildung 15: Diagnose-Änderungen nach dem Transfer in der Studienkohorte

Dargestellt ist die absolute Häufigkeit der Teilnehmenden deren Diagnose nach dem Transfer in die Erwachsenenbehandlung geändert wurde ($n = 65$). Die Abbildung ist angelehnt an Figure 3a aus (132).

Sieben Teilnehmende gaben an, nach dem Transfer eine andere Diagnose bekommen zu haben. In drei Fällen wurde bei stabiler Remission ein „Zustand nach“ der jeweiligen Ursprungsdiagnose diagnostiziert. Dreimal wurde die pädiatrische Diagnose durch eine internistische ersetzt, wie z.B. Rheumatoide Arthritis anstelle einer JIA. Eine Person, die im TTP mit einer extended OA behandelt wurde, hatte aufgrund neu aufgetretener Symptome die Verdachtsdiagnose eines SLE gestellt bekommen.

4.5.1.4 Änderungen der medikamentösen Therapie nach dem Transfer

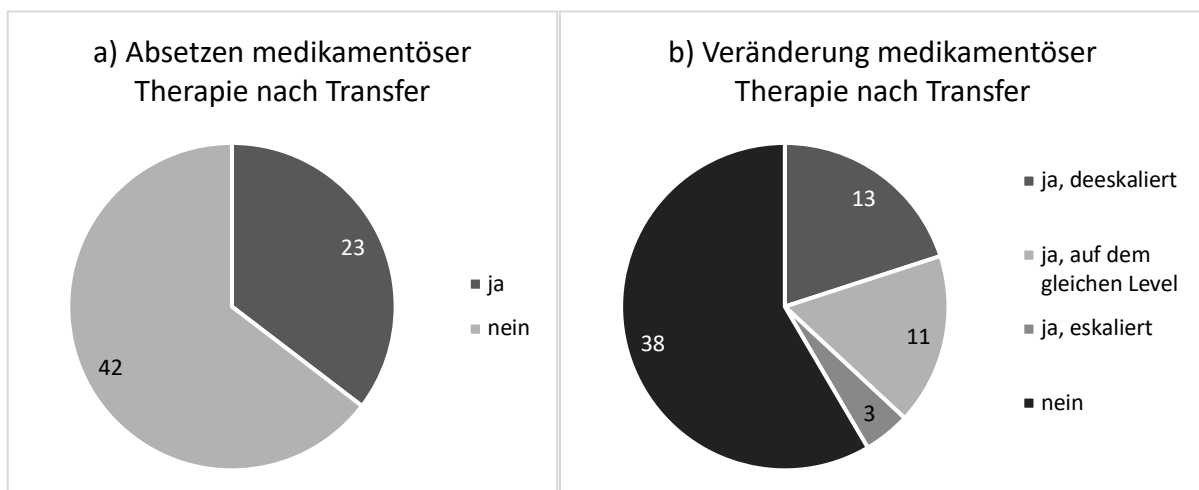


Abbildung 16: Änderungen der medikamentösen Therapie der Studienkohorte nach dem Transfer

Dargestellt sind die absoluten Häufigkeiten der Teilnehmenden, deren medikamentöse Therapie im Verlauf der Weiterbehandlung a) beendet oder b) verändert wurde. Bei Veränderungen wurde differenziert zwischen Eskalation, Deeskalation und Änderungen auf der gleichen Therapiestufe. Einzelne Teilnehmende gaben eine Änderung und eine spätere Beendigung der Therapie an, weshalb die beiden Graphen individuell zu betrachten sind. Die Abbildung ist angelehnt an Figure 3a aus (132).

Bei 23 Teilnehmenden (35,4%; 23/65) wurde in der Weiterbehandlung nach dem Transfer die medikamentöse Therapie beendet, in 78,3% der Fälle (18/23) aufgrund von Beschwerdefreiheit. Gleichzeitig wurde eine laufende Therapie häufiger eskaliert (48,1%; 13/27) als deeskaliert (11,1%; 3/27).

4.5.1.5 Sonstige Weiterbehandlung nach dem Transfer

Unabhängig von der rheumatologischen Weiterbehandlung gaben 76,5% der Befragten (65/85) an, regelmäßige augenärztliche Kontrolltermine wahrzunehmen. Die Mehrheit berichtete von mindestens jährlichen Vorstellungen (83,1%; 54/65). 36,5% der Studienkohorte (31/85) wurden über den Transfer hinaus physio- bzw. ergotherapeutisch behandelt. Allerdings gaben 20 Patienten, darunter 15 die weiterbetreut wurden an, dass Physio- oder Ergotherapie nicht weitergeführt wurde.

4.5.1.6 Unterschiede zwischen Teilnehmenden mit und ohne Weiterbehandlung

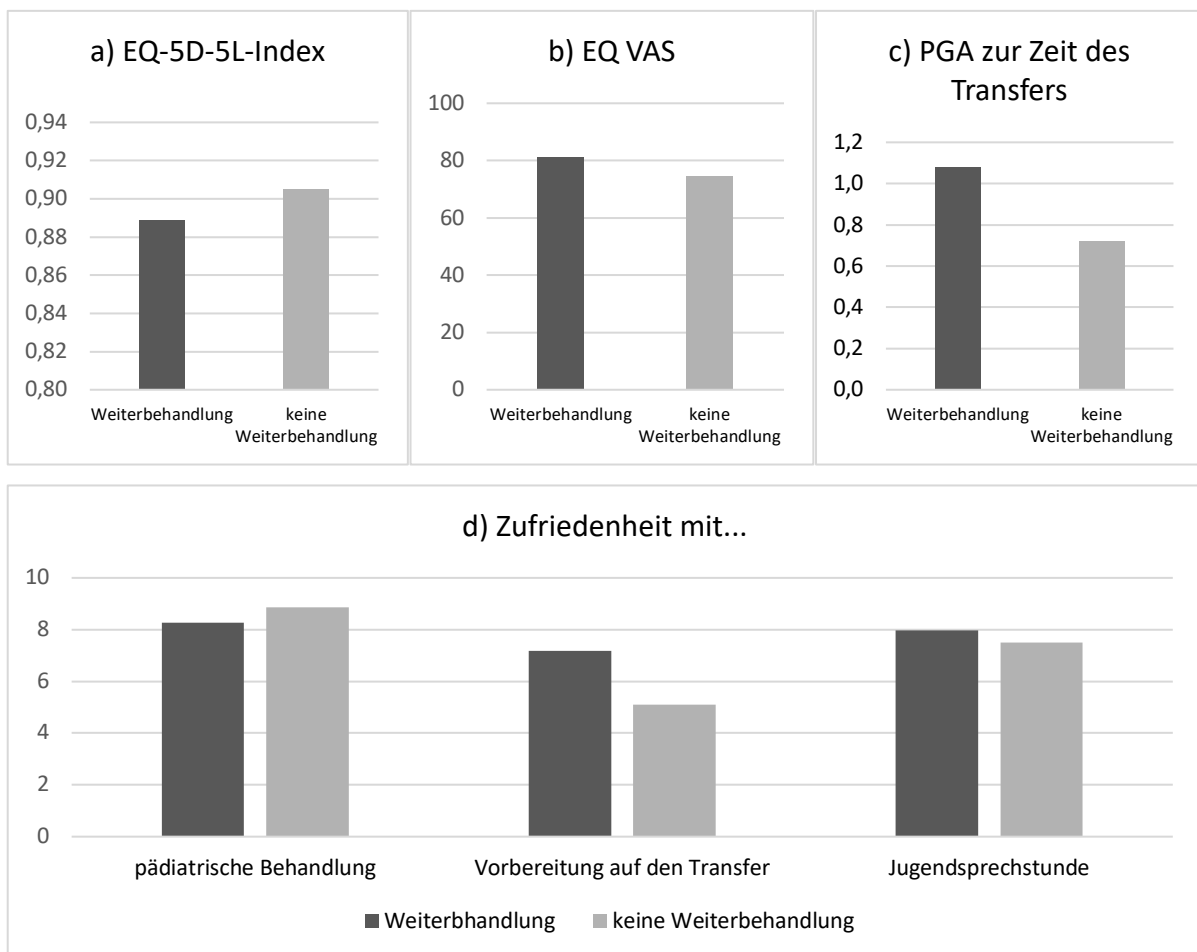


Abbildung 17: Unterschiede zwischen Patienten mit und ohne Weiterbehandlung nach dem Transfer

Dargestellt sind die Mittelwerte der Studienkohorte gruppiert nach dem Stattfinden einer initialen rheumatologischen Weiterbehandlung für die Kategorien a) EQ-5D-5L-Index; 0: schlechteste, 1: beste HR-QoL, b) EQ VAS zur heutigen gesundheitlichen Verfassung; 0: schlechteste, 100: beste Verfassung c) PGA bei Transfer; 0: keine, 10: höchste Krankheitsaktivität und d) Behandlungszufriedenheit; 0: niedrigste, 10: höchste Zufriedenheit. Die Abbildung ist angelehnt an Figure 3b aus (132).

Patienten ohne Weiterbehandlung hatten im Durchschnitt weniger Krankheitsaktivität zum Zeitpunkt des Transfers (PGA: 0,72 vs. 1,08) und höhere EQ-5D-5L-Index-Werte (0,91 vs. 0,89), aber eine schlechtere gesundheitliche Verfassung (74,6 vs. 81,1) und waren unzufriedener mit der Vorbereitung auf den Transfer (7,2 vs. 5,1).

4.5.2 Vermeidung unnötiger Krankenhausaufenthalte

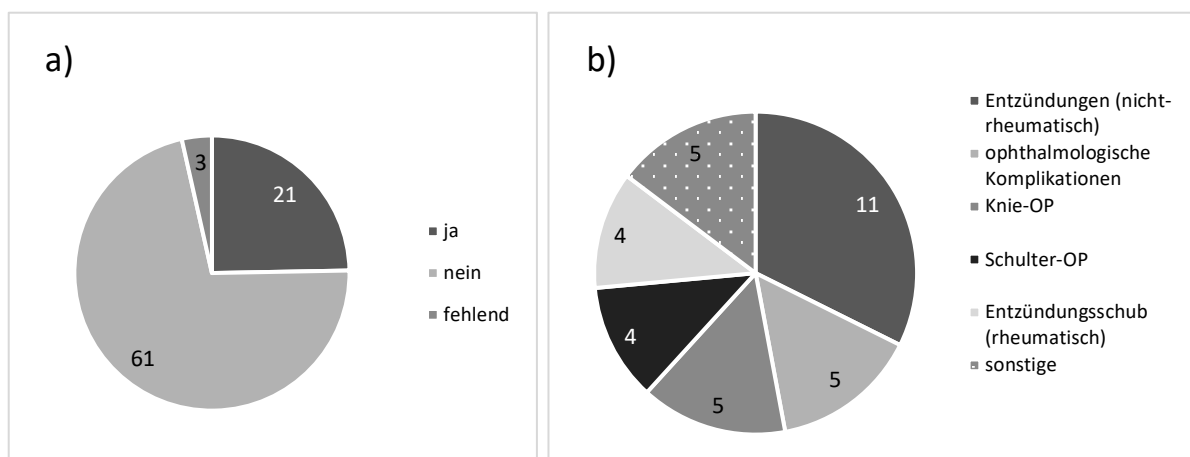


Abbildung 18: Hospitalisierungen nach dem Ende der Jugendsprechstunde

Dargestellt sind a) die absolute Häufigkeit der Patienten, die nach dem Transfer von Hospitalisierungen berichteten und b) die absolute Häufigkeit der Gründe für Hospitalisierungen. Hierbei wurden auch Patienten einbezogen, die nicht weiterbehandelt wurden ($n = 85$).

71,8% der Befragten (61/85) verneinten Krankenhausaufenthalte nach dem Transfer. Hauptgründe für Hospitalisierungen waren akute Entzündungen (z.B. Pneumonien), ophthalmologische Komplikationen, Knie-, und Schulter-Operationen.

4.5.3 Inanspruchnahme von Versorgungsangeboten

| | |
|---|--------------------|
| Inanspruchnahme der Jugendsprechstunde des TTP | |
| Alter beim ersten Termin im TTP in Jahren, Median (Spannweite) | 15,2 (11,2 – 18,7) |
| Alter beim letzten Termin im TTP in Jahren, Median (Spannweite) | 18,5 (17,0 – 20,7) |
| Dauer der Behandlung im TTP in Jahren, Median (Spannweite) | 3,4 (0,4 – 7,1) |
| Anzahl der Termine in der Jugendsprechstunde, Median (Spannweite) | 7 (2 – 18) |
| Inanspruchnahme weiterführender Angebote im Rahmen des TTP | |
| Psychosozialer Dienst, n (%) | 38 (44,7) |
| Klinikschule, n (%) | 8 (9,4) |
| Krankheits-bezogene Schulungen, n (%) | 2 (2,4) |
| Transitions-camp, n (%) | 4 (4,7) |
| Physiotherapie, n (%) | 28 (32,9) |

Tabelle 9: Inanspruchnahme der medizinischen Versorgungsangebote im Rahmen des TTP

Aufgelistet sind Verteilungen von Alter bei Erst- und Letzttermin, Dauer und Anzahl der Termine, sowie die absoluten und relativen Häufigkeiten der Patienten, die zusätzliche Angebote des TTP in Anspruch nahmen.

Im Median fand der erste Termin in der Jugendsprechstunde im Alter von 15,2 Jahren (11,2 – 18,7) statt, woraufhin in einer medianen Zeitspanne von 3,4 Jahren (0,4 – 7,1) zwischen 2 und 17 (Median: 7) Termine wahrgenommen wurden, bis der letzte Termin in einem medianen Alter von 18,5 Jahren (17,0 – 20,7) stattfand.

Im Rahmen des TTP wurden vor allem die psychosoziale Beratung (38/85; 44,7%) und weiterführende physiotherapeutische Angebote (28/85; 32,9%) wahrgenommen.

4.6 Mögliche prädiktive Faktoren für negative Langzeit-Outcomes

Für alle statistischen Tests wurde ein Signifikanzniveau von 5% ($\alpha = 0,05$) festgelegt. Im Folgenden werden nur statistisch signifikante Ergebnisse ($p < 0,05$) berichtet.

4.6.1 Faktoren, die mit einer niedrigeren HR-QoL korrelieren

4.6.1.1 Weibliches Geschlecht

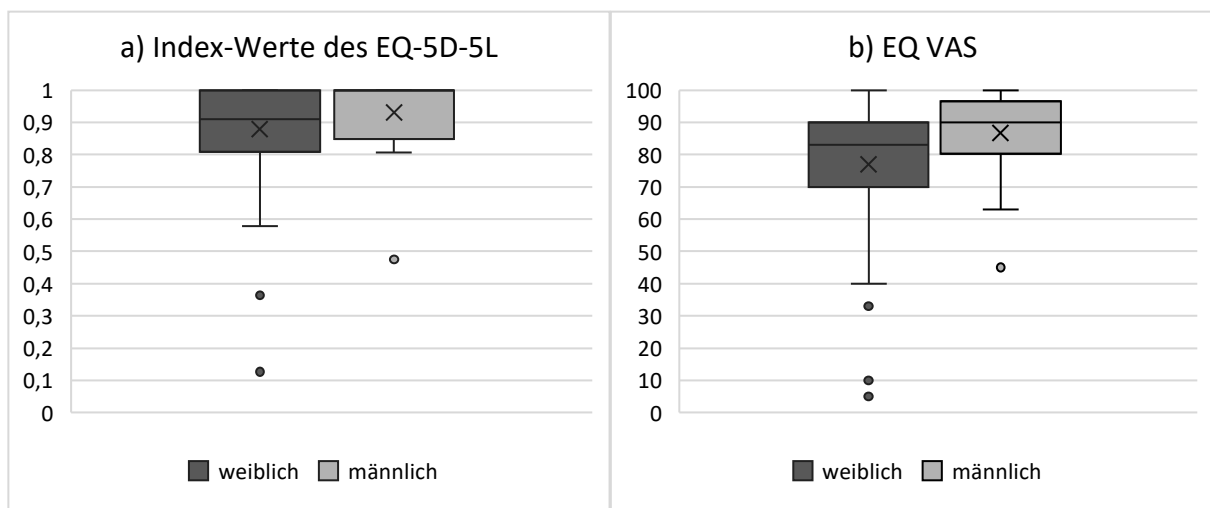


Abbildung 19: Effekt des Geschlechts auf die HR-QoL

Dargestellt sind die Verteilungen a) der Index-Werte des EQ-5D-5L und b) der heutigen gesundheitlichen Verfassung auf der EQ VAS, jeweils aufgeteilt nach dem Geschlecht.

Weibliche Teilnehmende gaben signifikant mehr Probleme bei alltäglichen Tätigkeiten an als männliche Teilnehmende ($p = 0,011$) und hatten im Schnitt niedrigere EQ-5D-5L-Index Werte ($p < 0,01$) und niedrigere gesundheitliche Verfassung ($p = 0,033$).

4.6.1.2 Physician's Global Assessment Score (PGA)

| Abhängige Variable | Beta-Koeffizient | Signifikanz |
|---|------------------|-------------|
| Probleme beim Gehen | 0,306 | 0,004 |
| Probleme mit der Selbstversorgung | 0,271 | 0,012 |
| Schmerzen/körperliche Beschwerden | 0,286 | 0,008 |
| Index-Value des EQ-5D-5L | -0,362 | < 0,001 |
| EQ VAS "heutige gesundheitliche Verfassung" | -0,293 | 0,025 |

Tabelle 10: Effekt des PGA zum Zeitpunkt des Transfers auf die HR-QoL

Aufgelistet sind alle Aspekte der HR-QoL, die mit dem PGA zum Zeitpunkt des Transfers korrelierten. Beta-Koeffizienten < 0,3: schwache, Beta-Koeffizienten > 0,5: starke Zusammenhänge.

Teilnehmende mit höherer Krankheitsaktivität zum Zeitpunkt des Transfers hatten eine signifikant schlechtere HR-QoL zum Studienzeitpunkt. Dies zeigte sich ebenfalls in den Kategorien Mobilität, Selbstversorgung und Schmerzen/körperliche Beschwerden.

4.6.1.3 Häufigkeit selbstberichteter körperlicher Aktivität

| Abhängige Variable | Beta-Koeffizient | Signifikanz |
|---|------------------|-------------|
| Probleme beim Gehen | -0,241 | 0,027 |
| Probleme bei alltäglichen Tätigkeiten | -0,300 | 0,006 |
| Angst/Niedergeschlagenheit | -0,340 | 0,002 |
| EQ VAS "heutige gesundheitliche Verfassung" | 0,260 | 0,018 |

Tabelle 11: Effekt der Häufigkeit körperlicher Aktivität auf die HR-QoL

Aufgelistet sind alle Aspekte der HR-QoL, die eine Korrelation mit der Häufigkeit körperlicher Aktivität aufwiesen. Beta-Koeffizienten < 0,3: schwache, Beta-Koeffizienten > 0,5: starke Zusammenhänge.

Die Frequenz körperlicher Aktivität zeigte eine positive Korrelation mit der HR-QoL. Patienten, die angaben weniger aktiv zu sein, gaben signifikant mehr Probleme beim Gehen, mit alltäglichen Tätigkeiten und Angst/Niedergeschlagenheit und eine signifikant niedrigere heutige gesundheitliche Verfassung an.

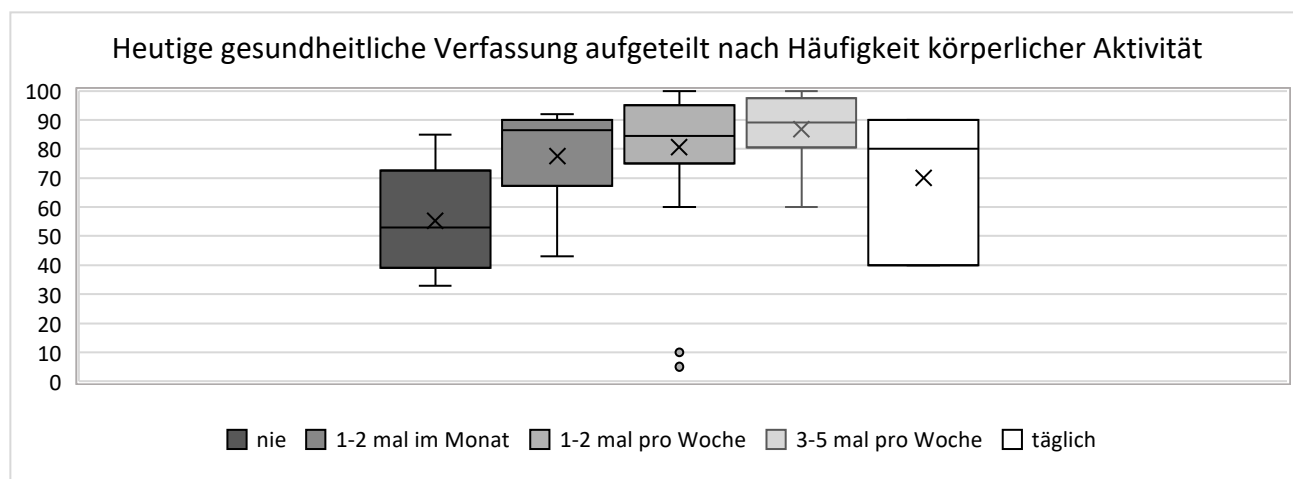


Abbildung 20: Effekt der Häufigkeit körperlicher Aktivität auf die heutige gesundheitliche Verfassung

Dargestellt ist die Verteilung der Werte für die heutige gesundheitliche Verfassung auf der EQ VAS, gruppiert nach den Antworten auf die Frage nach der wöchentlichen Häufigkeit körperlicher Aktivität.

In Abb. 21 wird der signifikante positive Zusammenhang zwischen häufigerer selbstberichteter körperlicher Aktivität und besserer gesundheitlicher Verfassung dargestellt. Die niedrigeren Werte in der Gruppe, die täglich körperlich aktiv war, fallen aufgrund der geringen Größe dieser Gruppe (n = 4) nicht ins Gewicht.

4.6.1.4 Frequenz der Weiterbehandlung

| Abhängige Variable | Beta-Koeffizient | Signifikanz |
|---------------------------------------|------------------|-------------|
| Probleme bei alltäglichen Tätigkeiten | 0,350 | 0,021 |
| Schmerzen/körperliche Beschwerden | 0,361 | < 0,001 |
| Index-Value des EQ-5D-5L | -0,335 | 0,002 |

Tabelle 12: Effekt der Häufigkeit rheumatologischer Weiterbehandlung auf die Gesundheitsbezogene Lebensqualität

Aufgelistet sind alle Aspekte der HR-QoL, die eine Korrelation mit der Häufigkeit rheumatologischer Weiterbehandlung nach dem Transfer aufwiesen. Der Beta-Koeffizient gibt die Effektstärke für diese Zusammenhänge an. Koeffizienten < 0,3 werden als schwach, Koeffizienten > 0,5 als starke Zusammenhänge bezeichnet.

Häufigere Termine in der Weiterbehandlung nach dem Transfer korrelierten mit mehr Problemen bei alltäglichen Tätigkeiten und mehr körperlichen Beschwerden.

4.6.1.5 Behandlungszufriedenheit

| Abhängige Variable | Unabhängige Variable Zufriedenheit mit... | Beta-Koeffizient | Signifikanz |
|------------------------------------|---|------------------|-------------|
| Index-Value des EQ-5D-5L | der Vorbereitung auf den Transfer | 0,273 | 0,016 |
| | der Information über Alkohol, Nikotin und andere Drogen | 0,476 | 0,005 |
| | der Erwachsenenbehandlung im Allgemeinen | 0,382 | 0,008 |
| | der Wartezeit auf einen Termin | 0,287 | 0,020 |
| | der Wartezeit vor Ort | 0,265 | 0,033 |
| | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | 0,282 | 0,023 |
| heutige gesundheitliche Verfassung | der pädiatrischen Behandlung im Allgemeinen | 0,309 | 0,005 |
| | der Vorbereitung auf den Transfer | 0,472 | < 0,001 |
| | der Jugendsprechstunde im Allgemeinen | 0,317 | 0,004 |
| | der Erwachsenenbehandlung im Allgemeinen | 0,452 | 0,021 |
| | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | 0,513 | 0,007 |

Tabelle 13: Effekt der Behandlungszufriedenheit auf die Gesundheitsbezogene Lebensqualität
Aufgelistet sind alle Aspekte der Behandlungszufriedenheit, die Zusammenhänge mit dem Index-Wert des EQ-5D-5L oder der heutigen gesundheitlichen Verfassung aufwiesen. Der Beta-Koeffizient gibt die Effektstärke für diese Zusammenhänge an. Koeffizienten < 0,3 werden als schwach, Koeffizienten > 0,5 als starke Zusammenhänge bezeichnet. Zusammenhänge zwischen Behandlungszufriedenheit und einzelnen Kategorien des EQ-5D-5L sind im Anhang aufgelistet.

Es zeigte sich eine signifikante positive Korrelation einzelner Items der Behandlungszufriedenheit mit der HR-QoL. Hervorzuheben ist der starke Effekt der Zufriedenheit mit der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer auf die heutige gesundheitliche Verfassung. Signifikante Zusammenhänge zwischen Items der

Behandlungszufriedenheit und den Kategorien des EQ-5D-5L sind im Anhang unter 7.4 aufgelistet. Auch hier zeigte sich jeweils ein positiver Zusammenhang.

4.6.2 Einflussfaktoren auf die Behandlungszufriedenheit

4.6.2.1 Physician's Global Assessment Score (PGA)

| Abhängige Variable | Beta-Koeffizient | Signifikanz |
|--|------------------|-------------|
| Zufriedenheit mit der Information über Alkohol, Nikotin und andere Drogen | -0,582 | <0,001 |
| Zufriedenheit mit der Information über Sexualität, Verhütung und Familienplanung | -0,461 | 0,032 |
| Zufriedenheit mit der Erwachsenenbehandlung im Allgemeinen | -0,273 | 0,025 |
| Zufriedenheit mit der Verordnung zusätzlicher Behandlungskomponenten | -0,344 | 0,042 |

Tabelle 14: Effekt des PGA zum Zeitpunkt des Transfers auf die Behandlungszufriedenheit
Aufgelistet sind alle Aspekte der HR-QoL, die eine Korrelation mit dem PGA zum Zeitpunkt des Transfers aufwiesen. Der Beta-Koeffizient gibt die Effektstärke für diese Zusammenhänge an. Koeffizienten < 0,3 werden als schwach, Koeffizienten > 0,5 als starke Zusammenhänge bezeichnet.

Eine höhere Krankheitsaktivität zum Zeitpunkt des Transfers korrelierte mit einer signifikant geringeren Behandlungszufriedenheit zum Studienzeitpunkt, vor allem hinsichtlich Adoleszenz-spezifischer Themen, sowie der Erwachsenenbehandlung.

4.6.2.2 Inanspruchnahme der Jugendsprechstunde

| Unabhängige Variable | Abhängige Variable Zufriedenheit mit... | Beta-Koeffizient | Signifikanz |
|---|--|------------------|-------------|
| Alter bei der ersten Jugendsprechstunde | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | 0,907 | 0,006 |
| | der Verordnung zusätzlicher Behandlungskomponenten | 0,877 | 0,031 |
| Dauer der Jugendsprechstunde | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | 0,773 | 0,028 |
| Zeit seit dem Transfer | der Vorbereitung auf den Transfer | -0,340 | 0,002 |
| | der Wartezeit vor Ort | -0,290 | 0,018 |

Tabelle 15: Einfluss verschiedener Aspekte der Inanspruchnahme der Jugendsprechstunde auf die Behandlungszufriedenheit
Aufgelistet sind verschiedene Aspekte der Inanspruchnahme der Jugendsprechstunde, die eine Korrelation mit Aspekten der Behandlungszufriedenheit aufwiesen. Der Beta-Koeffizient gibt die Effektstärke für diese Zusammenhänge an. Koeffizienten < 0,3 werden als schwach, Koeffizienten > 0,5 als starke Zusammenhänge bezeichnet.

Es zeigte sich ein signifikanter Zusammenhang zwischen niedrigerer Zufriedenheit mit der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer und einem früheren Beginn des TTP, andererseits aber auch mit einer kürzeren Behandlungsdauer im TTP. Je länger der

Transfer zum Studienzeitpunkt zurücklag, desto geringer war die Zufriedenheit mit der Vorbereitung auf den Transfer.

5 Diskussion

Der qualitative und quantitative Vergleich langfristiger Ergebnisse verschiedener, strukturierter Transitionsprogramme ist essenziell für die flächendeckende Etablierung Evidenz-basierter Standards und Gegenstand zahlreicher Studien. Die vorliegende Studie ist dabei die erste, die ein strukturiertes Transitionsprogramm wie das TTP hinsichtlich individueller, sozialer und das Gesundheitssystem betreffender Outcome-Kriterien nach Fair et al. (118) sowie Outcome-Kriterien aus allen drei Säulen des Triple Aim (119) untersuchte, während frühere Arbeiten vorrangig die Patientenzufriedenheit (125), die Behandlungskontinuität (134), die Inanspruchnahme (135) und nur vereinzelt mehrere Outcome-Kriterien (114, 126, 127) untersuchten. Im Voraus entwickelte ein interdisziplinäres Expertengremium in einem iterativen Prozess einen umfangreichen, standardisierten Fragebogen. Dieser basierte unter anderem auf den Ergebnissen eines Scoping Reviews und Beiträgen mehrerer aktueller Patienten. Da das TTP seit über 20 Jahren fester Bestandteil der rheumatologischen Behandlung im Zentrum für Kinder- und Jugendrheumatologie des UKT ist, konnte eine Vielzahl an ehemaligen Patienten mit unterschiedlicher Zeitspanne nach dem Transfer eingeschlossen werden. Als primäres Zielkriterium wurde die HR-QoL nach dem Transfer untersucht, sekundär wurden Daten zu körperlicher Aktivität, Behandlungszufriedenheit, Behandlungskontinuität und Inanspruchnahme von Versorgungsangeboten erhoben. Außerdem wurde in einer explorativen Analyse nach Faktoren gesucht, die mit einem negativen Langzeit-Outcome zusammenhängen. Weitere Alleinstellungsmerkmale dieser Arbeit sind die enge Zusammenarbeit mit aktuellen sowie ehemaligen Patienten in der Studienplanung und Konzeption des Fragebogens, sowie die Ergänzung der deskriptiven Analyse eines Transitionsprogramms durch eine explorative Analyse möglicher Prädiktoren für negative Langzeitergebnisse.

5.1 Individuelle Outcomes

5.1.1 Gesundheitsbezogene Lebensqualität

Ehemalige Patienten des TTP gaben nach dem Transfer in die Erwachsenenbehandlung eine zwar eingeschränkte, aber insgesamt noch gute HR-

QoL an. Dabei zeigten sich in den meisten Fällen nur leichte Probleme in den Kategorien des EQ-5D-5L. Schmerzen/körperliche Beschwerden und Angst/Niedergeschlagenheit wurden am häufigsten als Einschränkungen beschrieben. Gemessen an Werten der deutschen Allgemeinbevölkerung wurde in der Studienkohorte signifikant häufiger von Problemen bei alltäglichen Tätigkeiten sowie Angst/Niedergeschlagenheit berichtet, wodurch sich im Vergleich die reduzierte HR-QoL erklärt (129, 133).

Der Index-Wert des EQ-5D-5L für die HR-QoL belief sich in dieser Studie im Median auf 0,91. Mehr als ein Drittel der Studienkohorte erreichte eine optimale HR-QoL von 1,00. Die gesundheitliche Verfassung auf der EQ VAS wurde mit einem Median von 85,0 ebenfalls hoch bewertet. In Zusammenschau mit den individuellen Kategorien, in denen Problemfreiheit jeweils die meistgenannte Antwort war, ergibt sich eine gute HR-QoL. Dennoch gaben 52,9% bzw. 42,2% der Teilnehmenden Probleme in den Kategorien „Schmerzen/körperliche Beschwerden“ und „Angst/Niedergeschlagenheit“ an. Letzteres, sowie Probleme bei alltäglichen Aktivitäten wurden außerdem signifikant häufiger berichtet ($p < 0,005$) als in einer Studie zum Gesundheitszustand der deutschen Allgemeinbevölkerung mit etwa 2000 Teilnehmenden (129). Auch auf der EQ VAS gab die Studienkohorte verglichen mit 3500 Personen aus der deutschen Bevölkerung (133) in den Altersgruppen der 18-24-, sowie der 25-34-Jährigen schlechtere Durchschnittswerte für die gesundheitliche Verfassung an (79,4 vs. 85,3; 78,9 vs. 84,0), wobei dieser Unterschied statistisch nicht signifikant war.

Es ist bekannt, dass die Lebensqualität erwachsener Patienten mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen mit Beginn im Kindes- und Jugendalter reduziert ist. Foster et al. beschrieben 2003 signifikant schlechtere Ergebnisse bei erwachsenen JIA-Patienten im Vergleich zu einer gesunden Kontrollgruppe in fast allen Kategorien des Short Form 36 Gesundheitsfragebogen (SF-36) (136). Durch die Einführung der Biologika-Therapie wurde die Behandlung der JIA zwar deutlich verbessert (137), dennoch bestätigte sich diese Erkenntnis auch in Studien mit JIA-Patienten unter Biologika-Therapie (138). Bei Patienten mit *jSLE* und FMF wurde ebenfalls eine reduzierte HR-QoL im Vergleich zu gesunden Kontrollen festgestellt (44, 139). Allerdings konnten McDonagh et al. schon 2007 in einer prospektiven multizentrischen Studie positive Effekte eines strukturierten Transitionsprogramms auf die HR-QoL nachweisen (112). Hilderson et al. bekräftigten dies in einer prospektiven Längsschnittstudie bei der die Probanden, die ein Transitionsprogramm durchliefen im

Anschluss signifikant bessere HR-QoL aufwiesen als die Vergleichsgruppe nach Standardbehandlung (113).

Zwei Studien verglichen die HR-QoL von JIA-Patienten anhand des EQ-5D-3L mit der der Allgemeinbevölkerung und lassen daher einen Vergleich zu den Ergebnissen der vorliegenden Studie zu. Barth et al. (100) schlossen dabei mehr als 2500 erwachsene Patienten ein und fanden analog zur Studienkohorte des TTP eine gemessen an der Bevölkerung reduzierte HR-QoL, vor allem wegen Schmerzen/körperlicher Beschwerden und Angst/Niedergeschlagenheit. Allerdings waren die Unterschiede zur Bevölkerung bei Barth et al. im Gegensatz zur vorliegenden Studie in allen Kategorien signifikant (100). Wipff et al. fanden bei einer Kohorte französischer JIA-Patienten, die zum Studienzeitpunkt an einem Transitionsprogramm teilnahmen, ebenfalls signifikant mehr Probleme in allen fünf Kategorien verglichen mit der französischen Bevölkerung (138). Dabei ist zu beachten, dass in beiden Fällen der EQ-5D-3L genutzt wurde, eine Vorläuferversion des EQ-5D-5L mit einem nachweislich stärkeren Deckeneffekt (140). Dementsprechend sollte der in dieser Studie integrierte EQ-5D-5L zuverlässiger Unterschiede zu Bevölkerungsnormen identifizieren.

Vor allem bei der JIA stehen Schmerzen und körperliche Beschwerden unter den Einschränkungen durch chronische entzündlich-rheumatischen Erkrankungen im Vordergrund (141, 142). Dies gilt ebenso für erwachsene JIA-Patienten (136, 138), was mitunter aus einem Anstieg von Schmerzen und Krankheitsaktivität resultiert (101). Aber auch bei Patienten mit jSLE und FMF wurden signifikant mehr Schmerzen als bei gesunden Kontrollgruppen festgestellt (139, 143). Darüber hinaus konnten Erhart et al. anhand von Daten aus der Studie zur Gesundheit von Kindern und Jugendlichen in Deutschland (KiGGS) zeigen, dass Kinder mit chronischen somatischen Erkrankungen im Vergleich zur gesunden Bevölkerung ein dreifach erhöhtes Risiko für psychische Auffälligkeiten haben (144). Diese Beobachtung deckt sich mit den Ergebnissen mehrerer krankheitsspezifischer Studien, die beispielsweise ein höheres Risiko für das Auftreten einer Depression bei jSLE (145) oder signifikant schlechtere Werte auf den mentalen Skalen des SF-36 bei FMF-Patienten beschrieben (139). Fair et al. schlossen in einer Meta-Analyse zu Angst und Depression bei JIA-Patienten, dass diese Symptome deutlich häufiger und ausgeprägter auftreten als bei gesunden Kindern und postulierten, dass diese womöglich den größten Einflussfaktor auf die reduzierte HR-QoL darstellen (146).

Insgesamt zeigte sich in der Kohorte ehemaliger Patienten des TTP nach dem Transfer eine immer noch eingeschränkte HR-QoL. Wie erwartet berichteten Patienten vorrangig über körperliche Beschwerden und psychische Probleme. Immer wieder zeigen Studien eine im Vergleich zur Allgemeinbevölkerung reduzierte HR-QoL bei Patienten mit chronisch-entzündlichen rheumatischen Erkrankungen. Der aus der Literatur bekannte negative Effekt des Transfers auf körperliche Beschwerden und die Lebensqualität im Allgemeinen zeigte sich in dieser Studie jedoch weniger gravierend als in vergleichbaren Arbeiten.

5.1.2 Körperliche Aktivität

Die große Mehrheit der Studienkohorte gab regelmäßige körperliche Aktivität an und erfüllte die Empfehlungen der WHO zur körperlichen Aktivität (131) deutlich häufiger als die entsprechende Altersgruppe der deutschen Bevölkerung (130).

76,5% der Befragten gaben an, mindestens ein- bis zweimal wöchentlich körperlich aktiv zu sein und nur fünf Teilnehmende (5,9%) verneinten jegliche körperliche Aktivität. Die durchschnittliche Dauer körperlicher Aktivität pro Woche lag bei 3,44 h und damit über den von der WHO empfohlenen 2,5 h pro Woche (131). 61,0% der Studienkohorte erfüllten dieses Kriterium verglichen mit 20,4% der deutschen Bevölkerung (64,1% vs. 30,2% in der Altersgruppe von 18-29 Jahren) in der Studie zur Gesundheit Erwachsener in Deutschland (DEGS1) des Robert-Koch-Instituts (130).

Das TTP legt im Einklang mit neuen Erkenntnissen und aktuellen Leitlinien großen Wert auf die positiven Effekte von körperlicher Aktivität auf die körperliche, kognitive und psychische Entwicklung in der Adoleszenz (23, 147) und speziell auf den Verlauf chronisch rheumatischer Erkrankungen (148, 149). Diese Erkenntnis schlägt sich nicht nur in den Ergebnissen der vorliegenden Studie nieder. Daten aus einer Studie mit über 5000 deutschen JIA-Patienten zeigen, dass diese die WHO-Empfehlungen ebenfalls häufiger erfüllen als eine vergleichbare Stichprobe der gesunden Bevölkerung (150). Internationale Studien mit JIA-Patienten (151-154) und erwachsenen FMF-Patienten (155) hingegen fanden reduzierte körperliche Aktivität gegenüber gesunden Kontrollgruppen. Bisher wurde die körperliche Aktivität noch nicht im Rahmen eines strukturierten Trainingsprogramms untersucht, weshalb kein Nachweis von Schulungseffekten vorliegt. Stattdessen zeigten zwei Studien, wie auch die Daten der DEGS1, einen Rückgang der körperlichen Aktivität mit zunehmendem Alter (130, 151, 154).

Zusammenfassend kann die hohe körperliche Aktivität ehemaliger Patienten des TTP auch im Erwachsenenalter und insbesondere im Vergleich zur deutschen Bevölkerung als Hinweis auf einen positiven Effekt der Patientenschulung im Rahmen eines strukturierten Transitionsprogramms interpretiert werden.

5.2 Soziale Outcomes

Es zeigten sich trotz individueller Unterschiede hohe Zufriedenheitswerte mit der Behandlung im TTP und einzelnen Transitions-spezifischen Details, jedoch auch eine geringere Zufriedenheit mit der internistischen als mit der pädiatrischen Behandlung. Die Schulung über Adoleszenz-spezifische Themen bedarf nach den Ergebnissen dieser Studie in Zukunft mehr Aufmerksamkeit. Ehemalige Patienten des TTP schätzten die eigene Fähigkeit zum Selbstmanagement als hoch ein.

Sieben von zehn Items zur Zufriedenheit mit Behandlungskomponenten vor dem Transfer sowie alle Items zur Behandlung danach ergaben im Durchschnitt hohe Zufriedenheitswerte. Dennoch waren Teilnehmende mit der Behandlung vor dem Transfer ($8,42 \pm 1,68$) im Durchschnitt zufriedener als danach ($7,66 \pm 2,22$). Die Kategorien mit den geringsten Zufriedenheitswerten, waren die Thematisierung von Alkohol, Nikotin und anderen Drogen ($6,3 \pm 2,9$) sowie von Sexualität, Verhütung und Familienplanung ($5,4 \pm 2,9$). Hier gaben jeweils über die Hälfte der Befragten (60,0%; 74,3%) höchstens eine mäßige Zufriedenheit an. Ein Grund hierfür könnte die fehlende Relevanz für die Patienten sein. Mehrere Patienten erklärten in der telefonischen Nacherhebung, dass eine Aufklärung über Alkohol, Nikotin und sonstige Drogen aufgrund lebenslanger Abstinenz niemals relevant gewesen sei. Die Zufriedenheit mit medizinischen Themen, wie dem eigenen Krankheits- und Therapiewissen war im Vergleich deutlich höher ($8,51 \pm 1,85$; $7,97 \pm 2,02$). Die Zufriedenheit mit dem Selbstmanagement der eigenen Krankheit zum Zeitpunkt des Transfers war mit durchschnittlich $8,46 (\pm 2,12)$ einer der höchsten Werte. 82,9% der Befragten gaben in dieser Kategorie eine hohe Zufriedenheit an.

Obwohl die Behandlungszufriedenheit einen hohen Stellenwert für die Beurteilung der Effektivität von Transitionsprogrammen hat (119, 156), fehlen standardisierte, validierte Messinstrumente, die eine internationale Vergleichbarkeit herstellen könnten (116, 128, 157). In vielen Fällen decken sich zwar die abgefragten Themen, dennoch

werden in den meisten Studien eigene Instrumente und Skalen genutzt (114, 123, 126, 158-160). In der Untersuchung der Behandlungszufriedenheit ehemaliger Patienten aus dem Kinderrheumazentrum Sankt Augustin (126) zeigten sich auf einer VAS (0-10) im Durchschnitt höhere Zufriedenheitswerte für die pädiatrische Behandlung (9,3) als in der Tübinger Kohorte. Allerdings beschrieben die Autoren einen stärkeren Rückgang der Zufriedenheit mit der Behandlung nach dem Transfer (7,6). Diesen erklären die Autoren mit einem möglichen Bias sozialer Erwünschtheit, da die Befragung durch Mitarbeitende der pädiatrischen Klinik durchgeführt worden sei (126). Verschiedene internationale Studien untersuchten ebenfalls die Zufriedenheit mit rheumatologischen Transitionsprogrammen mittels VAS von 0-10 (114, 127, 161). Die durchschnittlichen Ergebnisse lagen zwischen 6,6 ($\pm 1,8$) (161) und 7,7 ($\pm 0,8$) (127) und damit in einem ähnlichen Bereich wie die des TTP.

Obwohl soziale Aspekte wie Drogenmissbrauch, Schwangerschaft und Verhütung entzündlich-rheumatische Erkrankungen und deren Therapien beeinflussen (83-85, 90) und daher relevante Bestandteile ganzheitlicher Betreuung in der Vorbereitung auf den Transfer darstellen (108), werden diese seltener untersucht als medizinische Aspekte. In validierten Instrumenten zur Messung der Transitions-spezifischen Behandlungszufriedenheit kommen soziale Themen teilweise nur implizit (162) oder gar nicht vor (161, 163). Stringer et al. (114) untersuchten ähnliche Aspekte im Rahmen der Evaluation des Transitionsprogramms in Halifax und fanden eine vergleichbar niedrige Zufriedenheit (Rauchen: $5,6 \pm 3,8$; Alkohol: $6,0 \pm 3,6$; Drogen: $5,8 \pm 4,0$; sexuelle Gesundheit: $5,9 \pm 3,6$). Die Autoren stellten die Vermutung an, dass viele Patienten in Transitionsprogrammen schon frühzeitig diagnostiziert wurden und daher über einen langen Zeitraum hinsichtlich der medizinischen Aspekte ihrer Erkrankung geschult würden. Soziale Faktoren würden vergleichsweise spät relevant, weshalb sich Patienten womöglich schlechter geschult fühlen (114).

Selbstmanagement-Fähigkeiten werden oftmals als eigenständiges Kriterium für den Erfolg von Transitionsprogrammen untersucht (108, 118, 156), nicht zuletzt da sie durch Implementierung eines solchen Programms verbessert werden können (127, 164, 165). Walter et al. befragten 74 ehemalige Patienten eines Transitionsprogramms in Rotterdam anhand der „On Your Own Feet Self-Efficacy Scale“ (OYOF-SES), die das Selbstmanagement mit einem Score zwischen 10 und 64 bemisst. Den hohen Durchschnittswert von 58,8 begründeten die Autoren dadurch, dass Patienten Sprechstundentermine unabhängig von den Eltern wahrnehmen (127). Die große

Zufriedenheit in der Tübinger Kohorte könnte somit auf die ähnliche Herangehensweise in der Jugendsprechstunde zurückgeführt werden. Stringer et al. beschrieben hingegen bei vergleichbarem Ansatz nur mäßige Patientenzufriedenheit mit dem eigenen Krankheitsmanagement ($6,9 \pm 3,1$), was den Zusammenhang zumindest infragestellt (114).

Zusammenfassend zeigte sich in dieser Studie eine hohe Behandlungszufriedenheit, auch gemessen an anderen Transitionsprogrammen. Ein Rückgang der Zufriedenheit mit der Behandlung nach dem Transfer könnte mit sozialer Erwünschtheit begründet werden. Die Zufriedenheit mit der Schulung zu medizinischen Aspekten war größer als die zu sozialen Aspekten, was entweder an fehlender Relevanz für einzelne Patienten oder einer längeren Zeitspanne für die Auseinandersetzung mit medizinischen Aspekten liegen könnte. In Zusammenschau mit den als hoch eingeschätzten Selbstmanagement-Fähigkeiten können diese Erkenntnisse als Indikator für die Wirksamkeit der Transition im TTP gewertet werden.

5.3 Outcomes im Gesundheitswesen

Die Behandlungskontinuität nach dem Transfer ist ein entscheidender Indikator für den Erfolg eines Transitionsprogramms (118, 119, 156). Die überwiegende Mehrheit der Studienkohorte wurde initial rheumatologisch weiterbehandelt und nahm regelmäßige Termine in der Erwachsenenbehandlung wahr. Der Hauptgrund für ausbleibende Weiterbehandlung oder vereinzelte Behandlungsabbrüche war das Erreichen einer stabilen Remission. Bei Weiterbehandlung in der MED, was aus Kapazitätsgründen vor allem Patienten mit höherer Krankheitsaktivität ermöglicht wird, war die Zeitspanne zwischen letztem Termin im TTP und internistischem Follow-Up mehrheitlich kurz.

Mehr als drei Viertel der Studienkohorte (76,5%; 65/85) gaben an, nach dem Transfer weiterbehandelt worden zu sein. Davon nahmen 72,3% (47/65) zum Studienzeitpunkt mindestens zwei Termine pro Jahr wahr. 77,8% (14/18) derjenigen, die nicht weiterbehandelt wurden, hatten im TTP eine stabile Remission erreicht, weshalb kein Transfer für notwendig erachtet worden war. Damit verblieben nur vier Teilnehmende (4,7%; 4/85), die trotz Bedarfs keine Weiterbehandlung erhielten. Folgerichtig zeigte sich auch ein durchschnittlich niedrigerer PGA zum Zeitpunkt des Transfers bei Teilnehmenden, die nicht weiterbehandelt wurden (0,70 vs. 1,08). Eine stabile

Remission war ebenso der häufigste Grund (50%; 4/8) für temporäre Unterbrechungen einer initialen Weiterbehandlung (12,3%; 8/65). Die Zeit zwischen dem letzten Termin im TTP und dem ersten Termin in der MED lag im Median bei 128 Tagen (13-983 Tage), mit wenigen Ausreißern nach oben, weshalb der Durchschnitt bei $188,7 \pm 193,4$ Tagen liegt.

Die Behandlungskontinuität wird in vielen Studien als Indikator eines erfolgreichen Transfers herangezogen, allerdings ohne einheitliche Definition. Während Jensen et al. in der Evaluation eines US-amerikanischen Transitionsprogramms mindestens zwei Termine bis acht Monate nach dem Transfer voraussetzten (123), genügte einer kanadischen Gruppe in der retrospektiven Auswertung der Weiterbehandlung eine einmalige internistische Vorstellung in den ersten zwei Jahren nach dem Transfer (134). In der vorliegenden Studie wurde mit der Abfrage der Weiterbehandlung unabhängig von der Zeitspanne nach dem Transfer ein möglichst breiter Ansatz gewählt, um eine bessere Vergleichbarkeit zu erhalten. Die Weiterbehandlungsrate des TTP lag mit 76,5% am oberen Ende des Spektrums der Ergebnisse vergleichbarer Studien (Spanne: 48,0%-74,0%) (114, 126, 134, 166). Dabei machten verschiedene Autoren die Beobachtung, dass Patienten, die nicht weiterbehandelt wurden, keine oder weniger Krankheitsaktivität aufwiesen (166, 167) oder dass Beschwerdefreiheit der häufigste Grund für fehlende Weiterbetreuung war (126). Diese Beobachtung wird oftmals als Erfolg gewertet, van Pelt et al. beschrieben dies hingegen als Risiko für die Patienten mit niedrigerer Krankheitsaktivität (167).

Behandlungsabbrüche nach initialer Weiterbehandlung werden seltener untersucht. Walter et al. fanden eine Abbruchrate von 10,4% innerhalb der ersten drei Jahre nach initial erfolgreichem Transfer. Dabei zeigte sich allerdings eine Diskrepanz zwischen den Abbruchraten der Patienten, die in eine gesonderte Klinik für jugendliche JIA-Patienten im gleichen Haus transferiert und derjenigen, die in der Erwachsenenmedizin weiterbetreut wurde (3,9% vs. 16,1%). Diese Beobachtung stützt die Empfehlung von EULAR und PReS, dass der Transfer auf möglichst kurzen und direkten Wegen mit bereits bekannten Ansprechpartnern erfolgen sollte (108). Dies deckt sich nicht mit den Daten der vorliegenden Studie (Abbruchrate 13,6 %; 4/29 bei Weiterbetreuung in der MED vs. 11,1%; 4/36 bei Niedergelassenen), was allerdings bei kleiner Fallzahl eher durch individuelle Faktoren wie häufige Umzüge begründet ist.

Zwei Studien mit Sichelzellerkrankheit- und Diabetes mellitus Typ 1-Patienten konnten zeigen, dass Transitionsprogramme die Zeitspanne zwischen dem letzten pädiatrischen und dem ersten internistischen Termin signifikant reduzieren können (168, 169). Bitencourt et al. schlossen, dass vor allem eine persönliche Übergabe von Pädiater zu Internist effektiv sei (170). Dies könnte die relativ kurze Zeitspanne der Tübinger Kohorte ($188,7 \pm 193,4$ Tage) erklären (Bitencourt et al: 221 ± 264 Tage (170); Son et al.: 253 ± 392 Tage (171); Hersh et al.: Median 7,1 Monate (0,7 – 33,6) (172)), da hier nur Werte von Patienten erfasst wurden, die in der MED, also demselben Klinikum von teilweise schon bekannten Ärzten weiterbehandelt wurden.

Zusammenfassend zeigte sich in dieser Studie eine hohe Behandlungskontinuität nach dem Transfer. Die überwiegende Mehrheit der Studienkohorte befand sich auch zum Studienzeitpunkt weiter in regelmäßiger rheumatologischer Behandlung. Es konnte eindeutig bestätigt werden, dass eine stabile Remission den häufigsten Grund für ausbleibende Weiterbehandlung nach dem Transfer, sowie Behandlungsabbrüche im Verlauf darstellt. Die Auswertung der Zeitdauer zwischen letztem Termin im TTP und erstem internistischen Termin bestätigt die Empfehlungen von EULAR und PReS einer persönlichen Übergabe zwischen Pädiater und Internist.

5.4 Mögliche Prädiktoren für negative Langzeit-Outcomes

Die Ergebnisse der Regressionsanalyse legen mehrere mögliche Prädiktoren für negative Langzeit-Outcomes mit klinischer Relevanz nahe. Es zeigte sich ein starker Zusammenhang zwischen einer höheren Krankheitsaktivität zum Zeitpunkt des Transfers und negativen individuellen und sozialen Langzeit-Outcomes. Außerdem lassen die Ergebnisse auf einen signifikanten Effekt von körperlicher Aktivität auf die HR-QoL schließen. Daten bezüglich der Inanspruchnahme des TTP könnten auf eine Verbesserung der Zufriedenheit mit der Vorbereitung auf den Transfer hinweisen.

Ein höherer PGA zum Zeitpunkt des Transfers korrelierte in der Studienkohorte mit signifikant mehr Problemen beim Gehen ($p = 0,004$; $\beta = 0,306$), mit der Selbstversorgung ($p = 0,012$; $\beta = 0,271$), mehr Schmerzen/körperlichen Beschwerden ($p = 0,008$; $\beta = 0,286$) und damit auch einer insgesamt niedrigeren HR-QoL ($p < 0,001$; $\beta = -0,362$). Außerdem gaben Patienten mit höherem PGA bei Transfer eine geringere Zufriedenheit mit der Erwachsenenbehandlung nach dem Transfer an ($p = 0,025$; $\beta =$

-0,273). Es empfiehlt sich daher, eine möglichst geringe Krankheitsaktivität zum Zeitpunkt des Transfers anzustreben, um negativen Langzeit-Outcomes vorzubeugen. Dies wird aktuell noch durch oben beschriebene politische Hindernisse erschwert und ist in Transitionsprogrammen wie dem TTP ausschließlich durch direktes Engagement internistischer Rheumatologen möglich. Gleichermaßen ist ein allgemein schwererer Krankheitsverlauf ein medizinisches Hindernis für die Umsetzung dieser Empfehlung, da in manchen Fällen schlichtweg keine Remission erreicht wird.

Patienten, die seltener körperlich aktiv waren, gaben signifikant mehr Probleme beim Gehen ($p = 0,027$; $\beta = 0,-241$), bei alltäglichen Tätigkeiten ($p = 0,006$; $\beta = 0,-300$) und mit Angst/Niedergeschlagenheit ($p = 0,002$; $\beta = -0,340$) an. Inaktivität korrelierte außerdem mit einer signifikant schlechteren gesundheitlichen Verfassung ($p = 0,018$; $\beta = 0,260$). Obwohl auch umgekehrt körperliche Beschwerden die körperliche Aktivität einschränken können, bestätigen die vorliegenden Ergebnisse dennoch die Bemühungen im TTP, Patienten hinsichtlich der Bedeutung körperlicher Aktivität für das Langzeit-Outcome von chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen intensiv zu schulen.

Je länger der Transfer zurücklag, desto unzufriedener waren Patienten mit der Vorbereitung auf den Transfer ($p = 0,002$; $\beta = -0,340$), was entweder auf eine negative Erinnerungsverzerrung oder eine tatsächliche Verbesserung des TTP hinsichtlich der individuellen Vorbereitung auf den Transfer schließen lässt. Patienten, die bei Eintritt ins TTP jünger waren, gaben nach dem Transfer signifikant geringere Zufriedenheit mit der Arzt-Patienten-Interaktion ($p = 0,006$; $\beta = 0,907$) an. Allerdings korrelierte auch eine kürzere Behandlungsdauer im TTP mit einer signifikant niedrigeren Zufriedenheit in derselben Kategorie ($p = 0,028$; $\beta = 0,773$), weshalb diese Daten keine eindeutige Aussage hinsichtlich des bestmöglichen Timings von Transitionsbeginn und Transfer erlauben.

Zahlreiche Studien zeigten einen inversen Zusammenhang zwischen Krankheitsaktivität und HR-QoL, unter anderem bei JIA- (173-175) und jSLE-Patienten (143). Toupin April et al. vermuteten, dass die Reduktion der Krankheitsaktivität auch das langfristige Outcome der HR-QoL verbessern könnte (175). Hier dient die vorliegende Studie als weiterer Anhaltspunkt, da sie zeigen konnte, dass ein niedriger PGA zum Zeitpunkt des Transfers auch mit einer langfristig höheren HR-QoL einhergeht. Der Einfluss der Krankheitsaktivität auf die Behandlungszufriedenheit,

speziell hinsichtlich der Transition ist dahingehend weniger gut untersucht. Cramm et al. beschrieben in einer Längsschnittstudie bei Patienten mit Diabetes mellitus Typ 1, JIA und neuromuskulären Erkrankungen einen Zusammenhang zwischen der Behandlungszufriedenheit und dem physischen Aspekt der HR-QoL (121). Del Giudice et al. befragten über 200 JIA-Patienten und deren Eltern zu den Einflussfaktoren auf die Behandlungszufriedenheit und fanden, dass eine niedrige Krankheitsaktivität vor allem die Zufriedenheit der Eltern positiv beeinflusste. Bei der Patientenzufriedenheit stand hingegen das allgemeine Wohlbefinden im Vordergrund, welches oftmals trotz niedriger Krankheitsaktivität als eingeschränkt wahrgenommen wird (176, 177). Ähnlich wie Stringer et al. aufgrund der hohen Zufriedenheit mit der Krankheitskontrolle beim Transfer folgerten (114), legen die starken Zusammenhänge zwischen niedrigem PGA-Score und hoher HR-QoL sowie hoher Zufriedenheit in dieser Kohorte nahe, den Zeitpunkt des Transfers individuell zu terminieren und hierbei die Krankheitsaktivität als ein Kriterium zu berücksichtigen.

Der Zusammenhang zwischen vermehrter körperlicher Aktivität und besserer HR-QoL wurde in zahlreichen Studien beschrieben (147, 151, 154, 178-180). Als mögliche Erklärungen wurden Schmerzreduktion (179), niedrigeres kardiovaskuläres Risiko (181), präventive und therapeutische Wirkung auf psychische Beschwerden (182), anti-inflammatorische Wirkung auf das Immunsystem (148, 183) sowie erhöhte Knochendichte (149) diskutiert, die darüber hinaus zu einer reduzierten Morbidität und Mortalität beitragen (184). Limenis et al. beschrieben eine Reduktion der Schmerzhäufigkeit und -intensität bei höherer körperlicher Aktivität als Resultat der Befragung von 50 JIA-Patienten und betonten damit die Rolle von Sport für die Schmerztherapie bei JIA (151). Gleichermaßen schlossen Pinto et al. in einer Vergleichsstudie mit JDM-Patienten und einer gesunden Kontrollgruppe, dass körperliche Aktivität ein wichtiger Ansatzpunkt für die Verbesserung der allgemeinen Gesundheit sei (99). Entgegengesetzt argumentierten Heale et al., dass viel mehr die bei chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen herabgesetzte HR-QoL in der Folge zu einer reduzierten körperlichen Aktivität führe (154), was der Annahme entspräche, dass Patienten mit rheumatischen Erkrankungen einen inaktiveren Lebensstil pflegen (185), womöglich wie oben diskutiert aufgrund vermehrter Schmerzen. Diesem Erklärungsansatz widerspricht allerdings die im Vergleich zur Bevölkerung deutlich erhöhte körperliche Aktivität der Studienkohorte des TTP.

Grundsätzlich besteht Konsens darüber, dass die Transition frühestmöglich begonnen werden sollte (108, 186). Dies ist im TTP sowie in zahlreichen weiteren Kliniken gängige Praxis (127, 135, 187), auch wenn die Evidenz für ein besseres Outcome bei frühem Beginn bisher gering ist. In einem Review publizierter Transitionsprogramme für Patienten mit rheumatischen Erkrankungen beschrieben Clemente et al. unterschiedliche Altersgrenzen, plädierten jedoch für einen frühen Einstieg aufgrund nachgewiesener Effekte eines Programms mit Beginn im Alter von 11 Jahren (116). Andemariam et al. hingegen beschrieben in einer Studie bei Patienten mit Sichelzellkrankheit einen Zusammenhang zwischen späterem Beginn der Transition und höherer Rate erfolgreicher Transfers (188), wobei fraglich ist, ob die Autoren die Begriffe „Transition“ und „Transfer“ fälschlicherweise synonym verwendeten. Allgemein wird eine flexible Terminierung des Transfers empfohlen, bei der die individuelle Bereitschaft kontinuierlich reevaluiert werden sollte (108, 186). Ein Diagnosen-übergreifendes Review fand bei späterem Transfer unter anderem eine höhere Behandlungszufriedenheit (189). Die Evaluation eines kanadischen Transitionsprogramms ergab eine hohe Zufriedenheit mit dem Alter bei Transfer, welches zwischen 17 und 20 Jahren lag (114). Diese Erkenntnisse in Zusammenschau mit der höheren Zufriedenheit bei längerer Behandlungsdauer im TTP in der vorliegenden Studie bekräftigen den Handlungsbedarf für eine flexiblere Terminierung des Transfers anstelle der in Deutschland verpflichtenden Altersgrenze von 18 Jahren. In dieser Studie ergab sich keine Evidenz hinsichtlich des besten Zeitpunkts für den Einstieg in ein Transitionsprogramm. Allerdings sollte die Krankheitsaktivität in Verbindung mit dem Alter und der Readiness als Indikator für das individuelle Timing des Transfers herangezogen werden, da eine möglichst niedrige Krankheitsaktivität mit einem langfristig besseren Outcome zusammenhängt. Darüber hinaus hat auch die körperliche Aktivität einen starken Einfluss auf das Outcome nach dem Transfer, was den interdisziplinären Ansatz im TTP mit intensiven Schulungen dahingehend bekräftigt.

5.5 Limitierungen

Die Rücklaufrate war in dieser Studie mit 28,8% eher gering und stellt die Repräsentativität der Ergebnisse infrage, da ein Selektionsbias in Form eines Freiwilligenbias möglich erscheint. Vorstellbar wäre, dass Patienten mit positiven

Erinnerungen an das TTP eher der Einladung zur Studienteilnahme folgten, sodass das Ergebnis der Gesamtkohorte möglicherweise schlechter ausgefallen wäre. Gleichmaßen könnte in der Studienkohorte eine stärker ausgeprägte Fähigkeit zum Selbstmanagement vorherrschen als in der Grundgesamtheit. Dennoch zeigte sich zumindest im Vergleich demographischer und klinischer Aspekte außer einer Altersdifferenz kein signifikanter Unterschied zwischen der Studien- und der Gesamtkohorte. Somit liegt nahe, dass eine größere Zeitspanne zwischen Transfer und Studienzeitpunkt der Hauptgrund für Nicht-Teilnahme war und damit eine angemessene Repräsentativität vorliegt. Darüber hinaus erzielten vergleichbare Studien ähnlich niedrige Rücklaufquoten (114, 121).

Nur für die HR-QoL als primären Endpunkt, nicht aber für die sekundären Endpunkte kam in dieser Studie ein validiertes Messinstrument zum Einsatz. Trotz des großen Forschungsinteresses an Langzeitoutcomes und Effekten von Transitionsprogrammen mangelt es weiterhin an validierten Messinstrumenten, die eine breite Vergleichbarkeit unterschiedlicher Ansätze erlauben. So existiert beispielsweise nur ein deutschsprachiges unter den ohnehin schon wenigen validierten Messinstrumenten für die Behandlungszufriedenheit (161-163). Dieses fand aufgrund der Ausführlichkeit und einiger für das TTP irrelevanter Items in dieser Studie keine Anwendung. Stattdessen wurden die einzelnen Outcomes, ähnlich wie in der Mehrzahl der vergleichbaren Studien, mit gezielt auf das evaluierte Transitionsprogramm zugeschnittenen Fragen untersucht (114, 123, 126, 158-160).

Anhand einer retrospektiven Querschnittstudie wie dieser können keine kausalen Aussagen über Effekte von Einfluss- auf Zielvariablen getroffen werden. In diesem Studiendesign fehlt eine Kontrollgruppe und es liegt eine größere Anfälligkeit für Verzerrungen, wie beispielsweise Erinnerungsbias vor. Die Zeitspanne zwischen dem Transfer und der Studienteilnahme betrug im Maximum 16 Jahre, womit nicht auszuschließen ist, dass sich die Wahrnehmung des TTP im Laufe der Zeit veränderte. Allerdings ermöglichte dieser Ansatz die Untersuchung der Langzeitoutcomes in einer möglichst breiten Stichprobe, womit eine gute Grundlage für weiterführende prospektive Studien geschaffen wurde. Diese könnten sowohl weitere relevante und bisher nicht untersuchte Parameter wie die Readiness oder die Patientenaktivierung untersuchen als auch Veränderungen in den Abläufen des TTP aufgrund der vorliegenden Erkenntnisse auf ihre Wirkung überprüfen.

5.6 Schlussfolgerung

In dieser Studie konnten umfangreiche und detaillierte Einblicke in die langfristigen Outcomes des TTP gesammelt werden, wobei sich an den aktuellen Empfehlungen hinsichtlich relevanter Outcome-Kriterien wie beispielsweise dem Triple Aim orientiert wurde, um größtmögliche Vergleichbarkeit zu garantieren. Damit leistet diese Studie einen relevanten Beitrag zur Erweiterung des Wissensstands über die Transition und damit zur Förderung der langfristigen Gesundheit von Patienten in der pädiatrischen Rheumatologie. Zusammenfassend belegen die Ergebnisse dieser Studie die langfristigen Erfolge der Transitionsmaßnahmen des TTP. Ehemalige Patienten weisen mehrheitlich eine hohe HR-QoL auf, auch wenn weiterhin Probleme bestehen, die dem zu erwartenden Krankheitsverlauf zuzuschreiben sind und das beobachtete Defizit gegenüber der deutschen Allgemeinbevölkerung erklären. Die allgemeine Behandlungszufriedenheit war hoch und Patienten fühlten sich individuell gut betreut und informiert, allerdings zeigten sich Defizite bei der Schulung über soziale, Adoleszenz-spezifische Komponenten der Transition. Es wurde eine hohe Behandlungskontinuität mit einem reibungslosen Transfer beschrieben, wobei sich bestätigte, dass das Erreichen einer stabilen Remission in der pädiatrischen Behandlung der häufigste Grund für das Ausbleiben des Transfers darstellt. Ein Einfluss des Alters bei Eintritt in das TTP oder bei Transfer auf die Langzeitergebnisse zeigte sich in dieser Studie nicht, jedoch ergaben sich eindeutige Hinweise auf die Notwendigkeit einer individuellen Terminierung. Die Krankheitsaktivität zum Zeitpunkt des Transfers sollte hierbei aufgrund der starken Korrelation mit dem langfristigen Outcome in den Fokus genommen werden. Weitere Erkenntnisse wie die hohe körperliche Aktivität der Studienkohorte, die hohe Zufriedenheit mit den eigenen Selbstmanagement-Fähigkeiten und der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer deuten auf die Wirksamkeit des multidisziplinären Ansatzes und die hohe Bedeutung intensiver Schulung im Rahmen der Transition hin. Der damit verbundene hohe personelle, zeitliche und finanzielle Aufwand ist notwendig und dennoch nicht im Leistungskatalog der Regelversorgung abgebildet, weshalb dringend weitere Evidenz hinsichtlich der Wirksamkeit konkreter Transitionsmaßnahmen notwendig ist. Diese sollten in Zukunft in weiterführenden prospektiven Studien mit definierten Outcome-Kriterien und standardisierten, validierten Messinstrumenten untersucht werden, um

die Empfehlung und Finanzierung einheitlicher, Kosten-effizienter Maßnahmen zu rechtfertigen. Im Optimalfall sollten diese Studien in den Alltag der Transitionsprogramme eingebettet werden, um eine lückenlose Beobachtung bei möglichst hoher Fallzahl zu garantieren und über die pädiatrische Betreuung hinaus konzipiert sein, um langfristige Wirksamkeit der Transitionsmaßnahmen zu garantieren. Gleichzeitig sollte weiterer Aufwand betrieben werden, Patienten mit hohem Risiko für ein schlechtes Langzeitoutcome früh zu identifizieren, um gezielt auf den erhöhten Schulungs- und Behandlungsbedarf eingehen zu können, wobei das Konstrukt der Readiness für das Monitoring infrage kommen könnte.

6 Zusammenfassung

Die Adoleszenz und das junge Erwachsenenalter beschreiben einen Lebensabschnitt, der Heranwachsende vor zahlreiche Schwierigkeiten stellt, welche durch chronische Erkrankungen noch verstärkt werden. Die Transition ist ein zielgerichteter, individueller Prozess, der chronisch Erkrankten in diesem Zeitraum bei der Bewältigung der alltäglichen, sowie Krankheits-spezifischen Herausforderungen helfen und den Transfer in die Erwachsenenbehandlung begleiten soll. Wie eine erfolgreiche Transition definiert, gemessen und vor allem mit welchem Ansatz am besten erreicht werden kann, ist aktuell Gegenstand intensiver Forschung. Das Tübinger Transitionsprogramm (TTP) stellt einen etablierten, multiprofessionellen und in den Klinikalltag gut integrierten Ansatz zur altersgerechten Behandlung und Vorbereitung auf den Transfer dar. Neben der rheumatologischen Behandlung steht die psychosoziale Begleitung und physiotherapeutische Schulung im Vordergrund.

Diese retrospektive Querschnittstudie erläutert und evaluiert den individuellen, multidisziplinären Ansatz des TTP. Dazu wurden Patienten befragt, die zwischen 01/2000 und 12/2019 im TTP behandelt wurden. Ziel war es, den Erfolg des Programms anhand etablierter Langzeit-Outcomes zu evaluieren. Hierzu wurde in einem multiprofessionellen Team unter Einbeziehung aktueller Patienten des TTP, ein standardisierter Fragebogen entwickelt, der individuelle, soziale und auf das Gesundheitssystem bezogene Outcome-Parameter beinhaltet. Darüber hinaus wurde nach Faktoren gesucht, anhand derer Patienten mit hohem Risiko für ein negatives Langzeit-Outcome früh identifiziert werden könnten.

85 ehemalige Patienten nahmen an der Studie teil, wovon die Mehrheit weiblich und mit einer JIA diagnostiziert worden war. Die Altersspanne erstreckte sich von 19,1 bis 40,5 Jahren und der letzte Termin im TTP lag zwischen 0,1 und 16,4 Jahren zurück. Nach dem Transfer war die Gesundheitsbezogene Lebensqualität (HR-QoL) niedriger als in der altersentsprechenden gesunden Bevölkerung und wurde vor allem durch körperliche Beschwerden, bzw. Angst und Niedergeschlagenheit eingeschränkt. Die Studienkohorte gab im Allgemeinen eine hohe Behandlungszufriedenheit an. Allerdings zeigte sich ein leichter Abfall der Zufriedenheit mit der Behandlung nach dem Wechsel in die Erwachsenenbehandlung und ein Defizit bezüglich der Schulung über soziale, Adoleszenz-spezifische Aspekte. Die überwiegende Mehrheit der Studienkohorte wurde erfolgreich in die Erwachsenenbehandlung transferiert, wobei

eine stabile Remission der vorrangige Grund für einen ausgebliebenen Transfer war. In der vorliegenden Studie gaben körperlich aktivere Patienten langfristig eine signifikant bessere HR-QoL an, Außerdem zeigte sich, dass ein niedriger Physician Global Assessment Score zum Zeitpunkt des Transfers langfristig mit einer besseren Lebensqualität und einer höheren Behandlungszufriedenheit einhergeht.

Transitionsprogramme sind essenziell, um den bekannten Anstieg der Krankheitsaktivität und den damit verbundenen Abfall der Lebensqualität nach dem Transfer zu vermindern. In dieser Studie zeigte sich im Allgemeinen eine gute Lebensqualität, auch längere Zeit nach dem Transfer. Bei immer noch eingeschränkter Vergleichbarkeit zeigte sich eine vergleichsweise gute Behandlungszufriedenheit, wobei vorbeschriebene Defizite hinsichtlich Adoleszenz-spezifischer Themen auch in dieser Kohorte auftraten. In der Tübinger Kohorte zeigte sich eine höhere Behandlungskontinuität als in vergleichbaren Studien. Die Erkenntnis, dass eine stabile Remission der häufigste Grund für ausbleibenden Transfer und Behandlungsabbrüche im Anschluss darstellt, wurde bestätigt. Die Assoziationen zwischen höherer körperlicher Aktivität, sowie niedrigerer Krankheitsaktivität beim Transfer betonen einerseits die Bedeutung physiotherapeutischer Begleitung in der Transition, andererseits die Empfehlung, den Transfer individuell und unter Einbeziehung der Krankheitsaktivität zu terminieren. Im Rahmen der laufenden Bemühungen, die Wirksamkeit von Transitionsmaßnahmen zu belegen, Risikopatienten zu identifizieren und bestmögliche Versorgung über die Pädiatrie hinaus zu garantieren, liefert diese Studie somit einen wertvollen Beitrag durch die Vorstellung und Evaluation eines langjährig etablierten, klinisch erprobten Transitionsprogramms und die Untersuchung möglicher frühzeitiger prädiktiver Faktoren für Langzeit-Outcomes nach dem Transfer.

7 Anhang

7.1 Abbildungsverzeichnis

| | |
|---|----|
| Abbildung 1: Gesundheitsbezogene Lebensqualität | 38 |
| Abbildung 2: Verteilung der Gesundheitsbezogenen Lebensqualität in der Studienkohorte anhand des EQ-5D-5L-Index | 40 |
| Abbildung 3: Heutige gesundheitliche Verfassung auf der EQ VAS (0 – 100) | 40 |
| Abbildung 4: HR-QoL der Studienkohorte im Vergleich mit der deutschen Bevölkerung | 42 |
| Abbildung 5: Frequenz körperlicher Aktivität in der Studienkohorte | 43 |
| Abbildung 6: Vereinssport in der Studienkohorte | 43 |
| Abbildung 7: Körperliche Aktivität der Studienkohorte im Vergleich mit der Bevölkerung | 44 |
| Abbildung 8: Verteilung der Behandlungszufriedenheit der Studienkohorte | 46 |
| Abbildung 9: Auswirkungen der Corona-Pandemie auf die Lebenssituation der Studienkohorte | 47 |
| Abbildung 10: Beziehung zwischen Erkrankung und sozialem Umfeld der Studienkohorte | 47 |
| Abbildung 11: Auswirkungen der Erkrankung auf Freizeitaktivitäten und Berufsleben | 48 |
| Abbildung 12: Aspekte der Arzt-Patienten-Beziehung nach dem Transfer | 49 |
| Abbildung 13: Behandlungskontinuität in der Studienkohorte nach dem Transfer.... | 50 |
| Abbildung 14: Behandlungsabbrüche nach initialer rheumatologischer Weiterbehandlung | 51 |
| Abbildung 15: Diagnose-Änderungen nach dem Transfer in der Studienkohorte | 52 |
| Abbildung 16: Änderungen der medikamentösen Therapie der Studienkohorte nach dem Transfer | 52 |
| Abbildung 17: Unterschiede zwischen Patienten mit und ohne Weiterbehandlung nach dem Transfer | 53 |
| Abbildung 18: Hospitalisierungen nach dem Ende der Jugendsprechstunde | 54 |
| Abbildung 19: Effekt des Geschlechts auf die HR-QoL..... | 55 |
| Abbildung 20: Effekt der Häufigkeit körperlicher Aktivität auf die heutige gesundheitliche Verfassung | 56 |

7.2 Tabellenverzeichnis

| | |
|--|----|
| Tabelle 1: Unterformen der JIA - Epidemiologische und klinische Charakteristika ... | 11 |
| Tabelle 2: Empfehlungen und Standards von EULAR und PReS zur Transition bei jungen Patienten mit chronischen entzündlich-rheumatischen Erkrankungen (108); <i>eigene Übersetzung</i> | 19 |
| Tabelle 3: Vorschlag für Outcome-Parameter zur Erfolgskontrolle von Transitionsmaßnahmen nach Fair et al. (119)..... | 20 |
| Tabelle 4: Zusammenstellung der am häufigsten untersuchten Outcome-Parameter in Studien zur Evaluation bestehender Transitionsprogramme nach Prior et al. (120). | 21 |
| Tabelle 5: Detaillierte Aufstellung der Häufigkeiten von Studienteilnahmen unterteilt nach Zeitpunkt und Methode | 35 |
| Tabelle 6: Demographische und klinische Daten der Studienkohorte..... | 36 |
| Tabelle 7: Vergleich der Kohorten hinsichtlich klinischer Parameter und Demographie | 37 |
| Tabelle 8: Behandlungszufriedenheit mit Gruppierung nach Ausmaß der Zufriedenheit | 46 |
| Tabelle 9: Inanspruchnahme der medizinischen Versorgungsangebote im Rahmen des TTP | 54 |
| Tabelle 10: Effekt des PGA zum Zeitpunkt des Transfers auf die HR-QoL..... | 56 |
| Tabelle 11: Effekt der Häufigkeit körperlicher Aktivität auf die HR-QoL | 56 |
| Tabelle 12: Effekt der Häufigkeit rheumatologischer Weiterbehandlung auf die Gesundheitsbezogene Lebensqualität | 57 |
| Tabelle 13: Effekt der Behandlungszufriedenheit auf die Gesundheitsbezogene Lebensqualität | 57 |
| Tabelle 14: Effekt des PGA zum Zeitpunkt des Transfers auf die Behandlungszufriedenheit..... | 58 |
| Tabelle 15: Einfluss verschiedener Aspekte der Inanspruchnahme der Jugendsprechstunde auf die Behandlungszufriedenheit..... | 58 |

7.3 Endgültige Version des Fragebogens zur Datenerhebung



**Erhebung der Gesundheitsbezogenen Lebensqualität junger Erwachsener mit
chronisch-rheumatischen Erkrankungen und Erfassung der Qualität der Transition in
der rheumatologischen Ambulanz der Universitätsklinik für Kinder- und
Jugendmedizin Tübingen**

Behandlung in der Kinder-Rheumatologie

heutiges Datum:

Wie zufrieden waren Sie mit folgenden Aspekten der Behandlung in der Kinder-Rheumatologie?
(zwischen 0 (geringste Zufriedenheit) & 10 (höchste Zufriedenheit) ankreuzen)

| | | | |
|---------------------------|---|-------|----|
| Behandlung allgemein | 0 | _____ | 10 |
| Vorbereitung auf Transfer | 0 | _____ | 10 |
| Jugendprechstunde | 0 | _____ | 10 |

Welche Angebote der Jugendprechstunde haben Sie genutzt?

() Psychosozialer Dienst () Klinikschule () Schulungen () Jugendcamp () Physiotherapie

Haben Sie sich bewusst gegen die Nutzung bestimmter Angebote der Jugendprechstunde
entschieden?

() Psychosozialer Dienst () Klinikschule () Schulungen () Jugendcamp () Physiotherapie

Warum? _____

Welche Angebote wären zusätzlich hilfreich gewesen? _____

Aktuelles Befinden

Beweglichkeit / Mobilität

Haben Sie Probleme beim Gehen?

() keine () leichte () mäßige () große () Umhergehen unmöglich

Selbstversorgung

Haben Sie Probleme, sich selbst zu waschen oder anzuziehen?

() keine () leichte () mäßige () große () Selbstversorgung unmöglich

Alltägliche Tätigkeiten (z.B. Arbeit, Studium, Hausarbeit, Familien-/Freizeitaktivitäten)

Haben Sie Probleme, Ihren alltäglichen Tätigkeiten nachzugehen?

() keine () leichte () mäßige () große () alltägliche Tätigkeiten unmöglich

Schmerzen/Körperliche Beschwerden

Haben Sie aktuell Schmerzen oder körperliche Beschwerden?

() keine () leichte () mäßige () starke () extreme Schmerzen



Angst/Niedergeschlagenheit

Fühlen Sie sich ängstlich und/oder deprimiert?

() nein () ein wenig () mäßig () sehr () extrem

Bewerten Sie bitte Ihre HEUTIGE gesundheitliche Verfassung auf folgender Skala von 0 bis 100.

0 (schlechteste mögliche Gesundheit)

100 (bestmögliche Gesundheit)

Wenn möglich, beschreiben Sie Ihre gesundheitliche Verfassung bitte kurz in Worten (z.B. „unbeeinträchtigt“, „eingeschränkt“, „aktive Krankheit“, etc.)

Hat sich Ihre Lebenssituation durch die Corona-Pandemie verändert?

() sehr negativ () leicht negativ () keine Veränderung () leicht positiv () sehr positiv

Wenn möglich, erläutern Sie bitte, wie sich Ihre Lebenssituation verändert hat. (z.B. Kurzarbeit, Homeschooling, Wohnsituation, Sport, Zukunftsangst, etc.)

Wie oft sind Sie in Ihrer Freizeit körperlich aktiv (z.B. Sport, Fahrrad fahren usw.), so dass Sie richtig ins Schwitzen kommen oder außer Atem sind?

() jeden Tag () 3-5 mal pro Woche () 1-2 mal pro Woche () 1-2 mal im Monat () nie

Wie viele Stunden sind das etwa in einer Woche? etwa _____ Stunden

Betreiben Sie eine Sportart im Verein? () nein () ja , wenn ja welche _____

Behandlung in der Erwachsenen-Rheumatologie

Wurden Sie bei der Suche nach einem Rheumatologen/einer Rheumatologin unterstützt?

() ja () nein

Werden Sie in der Rheuma-Ambulanz der Medizinischen Klinik weiter betreut? () ja () nein

Werden Sie bei einer/einem niedergelassenen Rheumatologen/Rheumatologin weiter betreut?

() ja () nein

Wenn ja, seit wann findet die Betreuung statt? _____

Wenn nein, warum nicht? _____

Wenn zeitweise eine Behandlung stattgefunden hat, wieso wurde diese abgebrochen?

Findet eine Behandlung in einer nicht-rheumatologischen Einrichtung statt? () ja () nein



Wie oft stellen Sie sich in besagter rheumatologischer Einrichtung vor?

() nie () monatlich () vierteljährlich () halbjährlich () _____

Wurde Ihre Diagnose geändert? () ja () nein

Wenn ja, wie lautet Ihre Diagnose jetzt? _____

Wurde die medikamentöse Therapie verändert? () ja () nein

Wenn ja, welche Medikamente nehmen Sie aktuell? _____

Wurde die medikamentöse Therapie beendet? () ja () nein

Wenn ja, warum?

() Beschwerdefreiheit () Nebenwirkungen () selbst beendet () _____

Hat seit dem Transfer in die Erwachsenen-Rheumatologie ein stationärer Aufenthalt stattgefunden?

() ja, einmal () ja, mindestens ____-mal () nein

Wenn ja, wieso? _____

Nahmen Sie nach dem Wechsel in die Erwachsenen-Sprechstunde noch Physiotherapie/Ergotherapie in Anspruch? () ja () nein

Benötigen Sie sonstige Hilfsmittel (Gehhilfen, Hörgeräte, etc.)? () ja () nein

Wenn ja, welche? _____

Stellen Sie sich regelmäßig beim Augenarzt vor? () ja () nein

Wenn ja, wie oft?

() 1x in zwei Jahren () 1x im Jahr () 2x im Jahr () 4x im Jahr () häufiger

Wie zufrieden waren Sie mit folgenden Aspekten der Behandlung in den ersten zwölf Monaten nach dem Wechsel in die Erwachsenen-Rheumatologie?

(zwischen 0 (geringste Zufriedenheit) & 10 (höchste Zufriedenheit) ankreuzen)

| | | | |
|--|---|-------|----|
| Behandlung allgemein | 0 | _____ | 10 |
| Wartezeit auf Termin | 0 | _____ | 10 |
| Wartezeit vor Ort | 0 | _____ | 10 |
| Arzt-Patienten-Kontakt | 0 | _____ | 10 |
| Verordnung von Physiotherapie, Ergotherapie, Sonstigem | 0 | _____ | 10 |

Hatten Sie bei den ersten beiden Terminen genügend Zeit alle Fragen anzusprechen, die Ihnen wichtig waren? () ja () nein

Bekamen Sie zufriedenstellende, verständliche Antworten? () ja () nein

Fühlten Sie sich ernst genommen? () ja () nein

Wurden Sie direkt in Entscheidungen (bzgl. Therapie, etc.) mit einbezogen? () ja () nein



Welche Probleme haben Sie in den **ersten zwölf Monaten nach dem Wechsel** erlebt?

Psychosoziale Faktoren

Hat sich Ihre Krankheit auf Ihre Beziehungen (zu Familie, FreundInnen, KollegInnen, etc.) ausgewirkt?
() positiv () negativ () gar nicht

Wenn ja, wie?

Hat sich Ihre Krankheit in den ersten zwölf Monaten nach dem Wechsel in die Erwachsenen-Sprechstunde auf ihre Freizeitaktivitäten ausgewirkt? () ja () nein

Erleben Sie Unterstützung bei der Krankheitsbewältigung? () ja () nein

Wenn ja, von wem und in welcher Form?

Fühlen Sie sich in der Lage, Probleme die sich im Zusammenhang mit Ihrer Erkrankung entwickeln können (z.B. Therapiekrise, Probleme im Job, etc.), zu lösen? () ja () nein

Sozioökonomischer Status

Was ist Ihr höchster Schulabschluss?

() Hauptschulabschluss () mittlere Reife () Fachhochschulreife () Abitur

Haben Sie eine Ausbildung abgeschlossen? () ja () nein

Sind Sie zur Zeit in diesem Beruf tätig? () ja () nein

Anzahl Krankheitstage durch die Hauptdiagnose in den letzten 3 Monaten? _____

Wurde die Berufswahl/Wahl des Studiengangs durch die Erkrankung beeinflusst? () ja () nein

Gab es Hilfen bei der Entscheidungsfindung? () ja () nein

Wenn ja, welche? _____

Persönliche Daten

Wohnsituation:

Familienstand:

Wie sind Sie versichert?

() Privat () Regelkasse () Sozialamt () weiß ich nicht

Wurde ein Schwerbehindertenausweis beantragt? () ja () nein

7.4 Effekt der Behandlungszufriedenheit auf die einzelnen Kategorien des EQ-5D-5L

| Abhängige Variable | Unabhängige Variable Zufriedenheit mit... | Beta- Koeffizient | Signifikanz |
|-----------------------------------|--|----------------------|-------------|
| Probleme beim Gehen | der pädiatrischen Behandlung im Allgemeinen | 0,563 | 0,008 |
| | der Thematisierung von Alkohol, Nikotin und anderen Drogen | -0,472 | 0,012 |
| | der Wartezeit auf einen Termin | -0,558 | 0,017 |
| | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | -0,584 | 0,010 |
| Selbstversorgung | der Thematisierung von Alkohol, Nikotin und anderen Drogen | -0,364 | 0,034 |
| | der Erwachsenenbehandlung im Allgemeinen | -0,418 | 0,037 |
| | der Wartezeit auf einen Termin | -0,384 | 0,049 |
| | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | -0,455 | 0,017 |
| Schmerzen/körperliche Beschwerden | der Thematisierung von Alkohol, Nikotin und anderen Drogen | -0,463 | 0,006 |
| | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | -0,763 | 0,007 |
| Angst/ Niedergeschlagenheit | der pädiatrischen Behandlung im Allgemeinen | -0,316 | 0,009 |
| | der Vorbereitung auf den Transfer | -0,305 | 0,043 |
| | dem eigenen Krankheitswissen | -0,345 | 0,046 |
| | der Wartezeit auf einen Termin | -0,475 | 0,006 |
| | der Arzt-Patienten-Interaktion nach dem Transfer | -0,500 | 0,003 |
| | der Verordnung zusätzlicher Behandlungskomponenten | -0,421 | 0,030 |

8 Literaturverzeichnis

1. Hinze C, Brunner HI. Pediatric rheumatology—its own specialty. *Nature Clinical Practice Rheumatology*. 2008;4(6):279-.
2. Haas J-P, Krawitz P. Genetik in der pädiatrischen Rheumatologie. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. *Pädiatrische Rheumatologie*. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 41-53.
3. Martini A, Lovell DJ, Albani S, Brunner HI, Hyrich KL, Thompson SD, et al. Juvenile idiopathic arthritis. *Nature Reviews Disease Primers*. 2022;8(1):5.
4. Symmons DP, Jones M, Osborne J, Sills J, Southwood TR, Woo P. Pediatric rheumatology in the United Kingdom: data from the British Pediatric Rheumatology Group National Diagnostic Register. *J Rheumatol*. 1996;23(11):1975-80.
5. Hanova P, Pavelka K, Dostal C, Holcatova I, Pikhart H. Epidemiology of rheumatoid arthritis, juvenile idiopathic arthritis and gout in two regions of the Czech Republic in a descriptive population-based survey in 2002-2003. *Clin Exp Rheumatol*. 2006;24(5):499-507.
6. Minden K. Classification and epidemiology of juvenile idiopathic arthritis. In: Hochberg MC, Silman AJ, Smolen JS, Weinblatt ME, Weisman MH, editors. *Rheumatology (Sixth Edition)*. Philadelphia: Mosby; 2015. p. 826-32.
7. Thierry S, Fautrel B, Lemelle I, Guillemin F. Prevalence and incidence of juvenile idiopathic arthritis: a systematic review. *Joint Bone Spine*. 2014;81(2):112-7.
8. Petty RE, Southwood TR, Manners P, Baum J, Glass DN, Goldenberg J, et al. International League of Associations for Rheumatology classification of juvenile idiopathic arthritis: second revision, Edmonton, 2001. *The Journal of Rheumatology*. 2004;31(2):390.
9. Sengler C, Klotsche J, Niewerth M, Liedmann I, Föll D, Heiligenhaus A, et al. The majority of newly diagnosed patients with juvenile idiopathic arthritis reach an inactive disease state within the first year of specialised care: data from a German inception cohort. *RMD Open*. 2015;1.
10. Ganser G, Tenbrock K, Minden K. Oligoartikuläre Verlaufsform der juvenilen idiopathischen Arthritis. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. *Pädiatrische Rheumatologie*. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 337-63.
11. Prakken B, Albani S, Martini A. Juvenile idiopathic arthritis. *The Lancet*. 2011;377(9783):2138-49.
12. Horneff G, Minden K, Föll D, Dannecker G. Polyartikuläre Verlaufsformen der juvenilen idiopathischen Arthritis. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. *Pädiatrische Rheumatologie*. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 365-91.
13. Roth J, Holzinger D, Minden K. Systemische Verlaufsform der juvenilen idiopathischen Arthritis (Morbus Still). In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. *Pädiatrische Rheumatologie*. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 317-35.
14. Ravelli A, Martini A. Juvenile idiopathic arthritis. *Lancet*. 2007;369(9563):767-78.
15. Girschick H, Hospach T, Minden K. Enthesitis-assoziierte Arthritis bei Kindern und Jugendlichen. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. *Pädiatrische Rheumatologie*. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 393-402.
16. Huemer C, Minden K. Juvenile Psoriasisarthritis. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. *Pädiatrische Rheumatologie*. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 403-12.

17. Robertson DM, Cabral DA, Malleson PN, Petty RE. Juvenile psoriatic arthritis: followup and evaluation of diagnostic criteria. *The Journal of rheumatology*. 1996;23(1):166-70.
18. Huemer C, Malleson PN, Cabral DA, Huemer M, Falger J, Zidek T, et al. Patterns of joint involvement at onset differentiate oligoarticular juvenile psoriatic arthritis from pauciarticular juvenile rheumatoid arthritis. *J Rheumatol*. 2002;29(7):1531-5.
19. Albers HM, Wessels JAM, van der Straaten RJHM, Brinkman DMC, Suijlekom-Smit LWA, Kamphuis SSM, et al. Time to treatment as an important factor for the response to methotrexate in juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis Care & Research*. 2009;61(1):46-51.
20. Wallace CA, Ringold S, Bohnsack J, Spalding SJ, Brunner HI, Milojevic D, et al. Extension Study of Participants from the Trial of Early Aggressive Therapy in Juvenile Idiopathic Arthritis. *The Journal of Rheumatology*. 2014;41(12):2459.
21. Minden K, Horneff G, Niewerth M, Seipelt E, Aringer M, Aries P, et al. Time of Disease-Modifying Antirheumatic Drug Start in Juvenile Idiopathic Arthritis and the Likelihood of a Drug-Free Remission in Young Adulthood. *Arthritis Care Res*. 2019;71(4):471-81.
22. Ravelli A, Consolaro A, Horneff G, Laxer RM, Lovell DJ, Wulffraat NM, et al. Treating juvenile idiopathic arthritis to target: recommendations of an international task force. *Ann Rheum Dis*. 2018;77(6):819-28.
23. Oommen PT, Schütz C, Baltruschat K, Deuter C, Foeldvari I, Ganser G, et al. S2k-Leitlinie „Therapie der Juvenilen Idiopathischen Arthritis“ (3. Auflage, 2019).
24. Klepper SE. Effects of an eight-week physical conditioning program on disease signs and symptoms in children with chronic arthritis. *Arthritis Care Res*. 1999;12(1):52-60.
25. Brosseau L, Taki J, Desjardins B, Thevenot O, Fransen M, Wells GA, et al. The Ottawa panel clinical practice guidelines for the management of knee osteoarthritis. Part one: introduction, and mind-body exercise programs. *Clin Rehabil*. 2017;31(5):582-95.
26. Selvaag AM, Aulie HA, Lilleby V, Flatø B. Disease progression into adulthood and predictors of long-term active disease in juvenile idiopathic arthritis. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2016;75(1):190.
27. Bertilsson L, Andersson-Gäre B, Fasth A, Petersson IF, Forsblad-D'elia H. Disease course, outcome, and predictors of outcome in a population-based juvenile chronic arthritis cohort followed for 17 years. *J Rheumatol*. 2013;40(5):715-24.
28. Minden K. Adult outcomes of patients with juvenile idiopathic arthritis. *Horm Res*. 2009;72 Suppl 1:20-5.
29. Tappeiner C, Klotsche J, Schenck S, Niewerth M, Minden K, Heiligenhaus A. Temporal change in prevalence and complications of uveitis associated with juvenile idiopathic arthritis: data from a cross-sectional analysis of a prospective nationwide study. *Clin Exp Rheumatol*. 2015;33(6):936-44.
30. Heiligenhaus A, Tappeiner C, Neudorf U. Uveitis bei Kindern und Jugendlichen mit juveniler idiopathischer Arthritis. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. *Pädiatrische Rheumatologie*. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 413-27.
31. Dimopoulou D, Trachana M, Pratsidou-Gertsis P, Sidiropoulos P, Kanakoudi-Tsakalidou F, Dimitroulas T, et al. Predictors and long-term outcome in Greek adults with juvenile idiopathic arthritis: a 17-year continuous follow-up study. *Rheumatology (Oxford)*. 2017;56(11):1928-38.

32. Wagner N, Haffner D, Tenbrock K, Dannecker G. Systemischer Lupus erythematosus bei Kindern und Jugendlichen. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. Pädiatrische Rheumatologie. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 497-532.
33. Rees F, Doherty M, Grainge M, Davenport G, Lanyon P, Zhang W. The incidence and prevalence of systemic lupus erythematosus in the UK, 1999–2012. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2016;75(1):136.
34. Pineles D, Valente A, Warren B, Peterson MGE, Lehman TJA, Moorthy LN. Worldwide incidence and prevalence of pediatric onset systemic lupus erythematosus. *Lupus*. 2011;20(11):1187-92.
35. Ambrose N, Morgan TA, Galloway J, Ionnoau Y, Beresford MW, Isenberg DA. Differences in disease phenotype and severity in SLE across age groups. *Lupus*. 2016;25(14):1542-50.
36. Minden K, Schalm S. Transition from pediatric to adult rheumatological care. *Z Rheumatol*. 2016;75(6):635-45.
37. Bertsias G, Ioannidis JPA, Boletis J, Bombardieri S, Cervera R, Dostal C, et al. EULAR recommendations for the management of systemic lupus erythematosus. Report of a Task Force of the EULAR Standing Committee for International Clinical Studies Including Therapeutics. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2008;67(2):195.
38. Kuhn A, Bonsmann G, Anders H-J, Herzer P, Tenbrock K, Schneider M. Diagnostik und Therapie des systemischen Lupus erythematosus. *Dtsch Arztebl International*. 2015;112(25):423-32.
39. Groot N, de Graeff N, Avcin T, Bader-Meunier B, Brogan P, Dolezalova P, et al. European evidence-based recommendations for diagnosis and treatment of childhood-onset systemic lupus erythematosus: the SHARE initiative. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2017;76(11):1788.
40. Mahmoud I, Jellouli M, Boukhris I, Charfi R, Ben Tekaya A, Saidane O, et al. Efficacy and Safety of Rituximab in the Management of Pediatric Systemic Lupus Erythematosus: A Systematic Review. *The Journal of Pediatrics*. 2017;187:213-9.e2.
41. Charras A, Smith E, Hedrich CM. Systemic Lupus Erythematosus in Children and Young People. *Current Rheumatology Reports*. 2021;23(3):20.
42. Jacobs JC. Systemic Lupus Erythematosus. In: Jacobs JC, editor. *Pediatric Rheumatology for the Practitioner*. New York, NY: Springer New York; 1982. p. 313-89.
43. Watson L, Leone V, Pilkington C, Tullus K, Rangaraj S, McDonagh JE, et al. Disease activity, severity, and damage in the UK Juvenile-Onset Systemic Lupus Erythematosus Cohort. *Arthritis Rheum*. 2012;64(7):2356-65.
44. Groot N, Shaikhani D, Teng YKO, de Leeuw K, Bijl M, Dolhain RJEM, et al. Long-Term Clinical Outcomes in a Cohort of Adults With Childhood-Onset Systemic Lupus Erythematosus. *Arthritis & Rheumatology*. 2019;71(2):290-301.
45. Roman MJ, Shanker BA, Davis A, Lockshin MD, Sammaritano L, Simantov R, et al. Prevalence and correlates of accelerated atherosclerosis in systemic lupus erythematosus. *N Engl J Med*. 2003;349(25):2399-406.
46. Feldman BM, Rider LG, Reed AM, Pachman LM. Juvenile dermatomyositis and other idiopathic inflammatory myopathies of childhood. *The Lancet*. 2008;371(9631):2201-12.
47. Symmons DP, Sills JA, Davis SM. The incidence of juvenile dermatomyositis: results from a nation-wide study. *Br J Rheumatol*. 1995;34(8):732-6.
48. Greenberg SA. Dermatomyositis and Type 1 Interferons. *Current Rheumatology Reports*. 2010;12(3):198-203.

49. Hinze C, Thon A. Dermatomyositis bei Kindern und Jugendlichen. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. Pädiatrische Rheumatologie. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 551-86.
50. Pachman LM. Juvenile Dermatomyositis: A Clinical Overview. *Pediatrics In Review*. 1990;12(4):117-24.
51. Bellutti Enders F, Bader-Meunier B, Baildam E, Constantin T, Dolezalova P, Feldman BM, et al. Consensus-based recommendations for the management of juvenile dermatomyositis. *Ann Rheum Dis*. 2017;76(2):329-40.
52. Hinze CH, Oommen PT, Dressler F, Urban A, Weller-Heinemann F, Speth F, et al. Development of practice and consensus-based strategies including a treat-to-target approach for the management of moderate and severe juvenile dermatomyositis in Germany and Austria. *Pediatric Rheumatology*. 2018;16(1):40.
53. Stringer E, Singh-Grewal D, Feldman BM. Predicting the course of juvenile dermatomyositis: Significance of early clinical and laboratory features. *Arthritis & Rheumatism*. 2008;58(11):3585-92.
54. Ravelli A, Trail L, Ferrari C, Ruperto N, Pistorio A, Pilkington C, et al. Long-term outcome and prognostic factors of juvenile dermatomyositis: A multinational, multicenter study of 490 patients. *Arthritis Care & Research*. 2010;62(1):63-72.
55. Schwartz T, Diederichsen LP, Lundberg IE, Sjaastad I, Sanner H. Cardiac involvement in adult and juvenile idiopathic inflammatory myopathies. *RMD Open*. 2016;2(2):e000291.
56. Sanner H, Aaløkken TM, Gran JT, Sjaastad I, Johansen B, Flatø B. Pulmonary outcome in juvenile dermatomyositis: a case-control study. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2011;70(1):86.
57. Toplak N, Dolezalová P, Constantin T, Sedivà A, Pašić S, Čížnar P, et al. Periodic fever syndromes in Eastern and Central European countries: results of a pediatric multinational survey. *Pediatric Rheumatology*. 2010;8(1):29.
58. Ben-Chetrit E, Touitou I. Familial Mediterranean Fever in the World. *Arthritis Care & Research*. 2009;61(10):1447-53.
59. Cuisset L, Jeru I, Dumont B, Fabre A, Cochet E, Le Bozec J, et al. Mutations in the autoinflammatory cryopyrin-associated periodic syndrome gene: epidemiological study and lessons from eight years of genetic analysis in France. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2011;70(3):495.
60. McGonagle D, McDermott MF. A proposed classification of the immunological diseases. *PLoS Med*. 2006;3(8):e297.
61. Kallinich T, Wittkowski H. Einleitung/Klassifikation autoinflammatorischer Syndrome bei Kindern und Jugendlichen. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. Pädiatrische Rheumatologie. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 725-38.
62. Kallinich T. FMF bei Kindern und Jugendlichen. In: Wagner N, Dannecker G, Kallinich T, editors. Pädiatrische Rheumatologie. Berlin, Heidelberg: Springer Berlin Heidelberg; 2022. p. 739-53.
63. Ozen S, Demirkaya E, Erer B, Livneh A, Ben-Chetrit E, Giancane G, et al. EULAR recommendations for the management of familial Mediterranean fever. *Ann Rheum Dis*. 2016;75(4):644-51.
64. De Benedetti F, Gattorno M, Anton J, Ben-Chetrit E, Frenkel J, Hoffman HM, et al. Canakinumab for the Treatment of Autoinflammatory Recurrent Fever Syndromes. *N Engl J Med*. 2018;378(20):1908-19.
65. Twig G, Livneh A, Vivante A, Afek A, Shamiss A, Derazne E, et al. Mortality risk factors associated with familial Mediterranean fever among a cohort of 1.25 million adolescents. *Annals of the rheumatic diseases*. 2014;73(4):704-9.

66. Blank N, Schönland SO. Autoinflammatorische Syndrome und Amyloid-A-Amyloidose. *Z Rheumatol.* 2020;79(7):649-59.
67. Kümmerle-Deschner JB. Cryopyrin-assoziiertes periodisches Syndrom. *Zeitschrift für Rheumatologie.* 2012;71(3):199-208.
68. Savic S, McDermott MF. Tumor Necrosis Factor (TNF) Receptor-Associated Periodic Syndrome (TRAPS). In: Hashkes PJ, Laxer RM, Simon A, editors. *Textbook of Autoinflammation.* Cham: Springer International Publishing; 2019. p. 329-45.
69. Hansmann S, Lainka E, Horneff G, Holzinger D, Rieber N, Jansson AF, et al. Consensus protocols for the diagnosis and management of the hereditary autoinflammatory syndromes CAPS, TRAPS and MKD/HIDS: a German PRO-KIND initiative. *Pediatr Rheumatol Online J.* 2020;18(1):17.
70. ter Haar NM, Oswald M, Jeyaratnam J, Anton J, Barron KS, Brogan PA, et al. Recommendations for the management of autoinflammatory diseases. *Annals of the Rheumatic Diseases.* 2015;74(9):1636.
71. Sawyer SM, Afifi RA, Bearinger LH, Blakemore S-J, Dick B, Ezech AC, et al. Adolescence: a foundation for future health. *The Lancet.* 2012;379(9826):1630-40.
72. Sawyer SM, Drew S, Yeo MS, Britto MT. Adolescents with a chronic condition: challenges living, challenges treating. *The Lancet.* 2007;369(9571):1481-9.
73. U.S. Department of Health and Human Services OoPA. *Adolescent Development Explained.* Washington D.C.: U.S. Government Printing Office; 2018.
74. Miauton L, Narring F, Michaud P-A. Chronic illness, life style and emotional health in adolescence: results of a cross-sectional survey on the health of 15-20-year-olds in Switzerland. *European Journal of Pediatrics.* 2003;162(10):682-9.
75. Suris J-C, Parera N. Sex, drugs and chronic illness: health behaviours among chronically ill youth. *European Journal of Public Health.* 2005;15(5):484-8.
76. Patton GC, Viner R. Pubertal transitions in health. *The Lancet.* 2007;369(9567):1130-9.
77. Casey BJ, Getz S, Galvan A. The adolescent brain. *Developmental Review.* 2008;28(1):62-77.
78. Galvan A, Hare TA, Parra CE, Penn J, Voss H, Glover G, et al. Earlier Development of the Accumbens Relative to Orbitofrontal Cortex Might Underlie Risk-Taking Behavior in Adolescents. *The Journal of Neuroscience.* 2006;26(25):6885.
79. Verthelyi D. Sex hormones as immunomodulators in health and disease. *International Immunopharmacology.* 2001;1(6):983-93.
80. Beeson PB. Age and sex associations of 40 autoimmune diseases. *The American Journal of Medicine.* 1994;96(5):457-62.
81. Teunissen HA, Spijkerman R, Cohen GL, Prinstein MJ, Engels RCME, Scholte RHJ. An experimental study on the effects of peer drinking norms on adolescents' drinker prototypes. *Addictive Behaviors.* 2014;39(1):85-93.
82. Litt DM, Stock ML. Adolescent alcohol-related risk cognitions: The roles of social norms and social networking sites. *Psychology of Addictive Behaviors.* 2011;25:708-13.
83. Whiting-O'Keefe QE, Fye KH, Sack KD. Methotrexate and histologic hepatic abnormalities: A meta-analysis. *The American Journal of Medicine.* 1991;90(1):711-6.
84. Toloza SMA, Uribe AG, McGwin Jr G, Alarcón GS, Fessler BJ, Bastian HM, et al. Systemic lupus erythematosus in a multiethnic US cohort (LUMINA): XXIII. Baseline predictors of vascular events. *Arthritis & Rheumatism.* 2004;50(12):3947-57.
85. Drechsel P, Stüdemann K, Niewerth M, Horneff G, Fischer-Betz R, Seipelt E, et al. Pregnancy outcomes in DMARD-exposed patients with juvenile idiopathic arthritis—results from a JIA biologic registry. *Rheumatology.* 2020;59(3):603-12.

86. Chen JS, Ford JB, Roberts CL, Simpson JM, March LM. Pregnancy outcomes in women with juvenile idiopathic arthritis: a population-based study. *Rheumatology (Oxford)*. 2013;52(6):1119-25.
87. Ehrmann Feldman D, Vinet É, Bernatsky S, Duffy C, Hazel B, Meshefedjian G, et al. Birth Outcomes in Women with a History of Juvenile Idiopathic Arthritis. *J Rheumatol*. 2016;43(4):804-9.
88. Buckley LM, Bullaboy CA, Leichtman L, Marquez M. Multiple congenital anomalies associated with weekly low-dose methotrexate treatment of the mother. *Arthritis & Rheumatism*. 1997;40(5):971-3.
89. Milunsky A, Graef JW, Gaynor MF. Methotrexate-induced congenital malformations: With a review of the literature. *The Journal of Pediatrics*. 1968;72(6):790-5.
90. Götestam Skorpen C, Hoeltzenbein M, Tincani A, Fischer-Betz R, Elefant E, Chambers C, et al. The EULAR points to consider for use of antirheumatic drugs before pregnancy, and during pregnancy and lactation. *Ann Rheum Dis*. 2016;75(5):795-810.
91. Shoop-Worrall SJW, Kearsley-Fleet L, Thomson W, Verstappen SMM, Hyrich KL. How common is remission in juvenile idiopathic arthritis: A systematic review. *Semin Arthritis Rheum*. 2017;47(3):331-7.
92. Minden K, Niewerth M. Rheumakranke Kinder und Jugendliche. *Monatsschrift Kinderheilkunde*. 2012;160(3):237-43.
93. Hersh AO, von Scheven E, Yazdany J, Panopalis P, Trupin L, Julian L, et al. Differences in long-term disease activity and treatment of adult patients with childhood- and adult-onset systemic lupus erythematosus. *Arthritis Rheum*. 2009;61(1):13-20.
94. Mathiesen P, Hegaard H, Herlin T, Zak M, Pedersen FK, Nielsen S. Long-term outcome in patients with juvenile dermatomyositis: a cross-sectional follow-up study. *Scandinavian Journal of Rheumatology*. 2012;41(1):50-8.
95. Sanner H, Gran J-T, Sjaastad I, Flatø B. Cumulative organ damage and prognostic factors in juvenile dermatomyositis: a cross-sectional study median 16.8 years after symptom onset. *Rheumatology*. 2009;48(12):1541-7.
96. Wekell P, Karlsson A, Berg S, Fasth A. Review of autoinflammatory diseases, with a special focus on periodic fever, aphthous stomatitis, pharyngitis and cervical adenitis syndrome. *Acta Paediatrica*. 2016;105(10):1140-51.
97. Lachmann HJ. Periodic fever syndromes. *Best Practice & Research Clinical Rheumatology*. 2017;31(4):596-609.
98. Makay B, Unsal E, Arslan N, Varni JW. Health-related quality of life of school-age children with familial Mediterranean fever. *Clin Exp Rheumatol*. 2009;27(2 Suppl 53):S96-101.
99. Pinto AJ, Yazigi Solis M, de Sá Pinto AL, Silva CA, Maluf Elias Sallum A, Roschel H, et al. Physical (in)activity and its influence on disease-related features, physical capacity, and health-related quality of life in a cohort of chronic juvenile dermatomyositis patients. *Seminars in Arthritis and Rheumatism*. 2016;46(1):64-70.
100. Barth S, Haas JP, Schlichtiger J, Molz J, Bisdorff B, Michels H, et al. Long-Term Health-Related Quality of Life in German Patients with Juvenile Idiopathic Arthritis in Comparison to German General Population. *PLoS One*. 2016;11(4):e0153267.
101. Niewerth M, Minden K, Klotsche J, Horneff G. Biologikatherapie der juvenilen idiopathische Arthritis im jungen Erwachsenenalter. *Zeitschrift für Rheumatologie*. 2014;73(6):532-40.
102. Hersh A, von Scheven E, Yelin E. Adult outcomes of childhood-onset rheumatic diseases. *Nat Rev Rheumatol*. 2011;7(5):290-5.
103. Minden K, Niewerth M. Transition aus der Sicht des Kinderrheumatologen. *Z Rheumatol*. 2013;72(8):750-5.

104. Sachverständigenrat zur Begutachtung der Entwicklung im G. Spezielle Versorgungsanforderungen im Übergang vom Jugend- ins Erwachsenenalter (transitional care). Koordination und Integration - Gesundheitsversorgung in einer Gesellschaft des längeren Lebens: Sondergutachten 2009. 1 ed. Baden-Baden: Nomos Verlagsgesellschaft mbH & Co. KG; 2010.
105. Blum RW, Garell D, Hodgman CH, Jorissen TW, Okinow NA, Orr DP, et al. Transition from child-centered to adult health-care systems for adolescents with chronic conditions. A position paper of the Society for Adolescent Medicine. *J Adolesc Health*. 1993;14(7):570-6.
106. Jordan A, McDonagh JE. Transition: getting it right for young people. *Clin Med (Lond)*. 2006;6(5):497-500.
107. Cooley WC, Sagerman PJ, American Academy of Pediatrics AAoFP, American College of Physicians TCRAG. Supporting the Health Care Transition From Adolescence to Adulthood in the Medical Home. *Pediatrics*. 2011;128(1):182-200.
108. Foster HE, Minden K, Clemente D, Leon L, McDonagh JE, Kamphuis S, et al. EULAR/PReS standards and recommendations for the transitional care of young people with juvenile-onset rheumatic diseases. *Ann Rheum Dis*. 2017;76(4):639-46.
109. Sengler C, Niewerth M, Minden K. Rheumatische Erkrankungen im Kindes- und Jugendalter: Wichtigkeit einer frühzeitigen multiprofessionellen Versorgung. *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz*. 2020;63(7):846-55.
110. Schalm S, Niewerth M, Minden K. Neue Unterstützungsangebote für die Betreuung junger Rheumatiker. *Zeitschrift für Rheumatologie*. 2018;77(8):685-93.
111. Minden K, Niewerth M, Müther S. Berliner TransitionsProgramm. *Zeitschrift für Rheumatologie*. 2014;73(6):526-31.
112. McDonagh JE, Southwood TR, Shaw KL, BSPAR. The impact of a coordinated transitional care programme on adolescents with juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatology*. 2007;46(1):161-8.
113. Hilderson D, Moons P, Van der Elst K, Luyckx K, Wouters C, Westhovens R. The clinical impact of a brief transition programme for young people with juvenile idiopathic arthritis: results of the DON'T RETARD project. *Rheumatology*. 2016;55(1):133-42.
114. Stringer E, Scott R, Mosher D, MacNeill I, Huber AM, Ramsey S, et al. Evaluation of a Rheumatology Transition Clinic. *Pediatric Rheumatol*. 2015;13:22.
115. McDonagh JE, Farre A. Are we there yet? An update on transitional care in rheumatology. *Arthritis Res Ther*. 2018;20(1):5.
116. Clemente D, Leon L, Foster H, Minden K, Carmona L. Systematic review and critical appraisal of transitional care programmes in rheumatology. *Semin Arthritis Rheum*. 2016;46(3):372-9.
117. Coyne B, Hallowell SC, Thompson M. Measurable Outcomes After Transfer From Pediatric to Adult Providers in Youth With Chronic Illness. *J Adolesc Health*. 2017;60(1):3-16.
118. Fair C, Cuttance J, Sharma N, Maslow G, Wiener L, Betz C, et al. International and Interdisciplinary Identification of Health Care Transition Outcomes. *JAMA Pediatr*. 2016;170(3):205-11.
119. Prior M, McManus M, White P, Davidson L. Measuring the "triple aim" in transition care: a systematic review. *Pediatrics*. 2014;134(6):e1648-61.
120. Berwick DM, Nolan TW, Whittington J. The triple aim: care, health, and cost. *Health Aff (Millwood)*. 2008;27(3):759-69.
121. Cramm JM, Strating MMH, Sonneveld HM, Nieboer AP. The Longitudinal Relationship Between Satisfaction with Transitional Care and Social and Emotional

Quality of Life Among Chronically Ill Adolescents. *Applied Research in Quality of Life*. 2013;8(4):481-91.

122. Stinson J, Ahola Kohut S, Forgeron P, Amaria K, Bell M, Kaufman M, et al. The iPeer2Peer Program: a pilot randomized controlled trial in adolescents with Juvenile Idiopathic Arthritis. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2016;14(1):48.

123. Jensen PT, Karnes J, Jones K, Lehman A, Rennebohm R, Higgins GC, et al. Quantitative evaluation of a pediatric rheumatology transition program. *Pediatric Rheumatol*. 2015;13:17.

124. Nieboer AP, Cramm JM, Sonneveld HM, Roebroek ME, van Staa A, Strating MM. Reducing bottlenecks: professionals' and adolescents' experiences with transitional care delivery. *BMC Health Serv Res*. 2014;14:47.

125. Shaw KL, Southwood TR, McDonagh JE, BSPAR. Young people's satisfaction of transitional care in adolescent rheumatology in the UK. *Child: Care, Health and Development*. 2007;33(4):368-79.

126. Klein A, Olbert F, Wintrich S, Lutz-Wiegers V, Horneff G. Transition in der Kinderrheumatologie - Erfahrungen aus dem Kinderrheumazentrum Sankt Augustin. *Z Rheumatol*. 2018;77(8):677-84.

127. Walter M, Kamphuis S, van Pelt P, de Vroed A, Hazes JMW. Successful implementation of a clinical transition pathway for adolescents with juvenile-onset rheumatic and musculoskeletal diseases. *Pediatric Rheumatol*. 2018;16(1):50.

128. McDonagh JE, Farre A. Transitional Care in Rheumatology: a Review of the Literature from the Past 5 Years. *Curr Rheumatol Rep*. 2019;21(10):57.

129. Hinz A, Kohlmann T, Stöbel-Richter Y, Zenger M, Brähler E. The quality of life questionnaire EQ-5D-5L: psychometric properties and normative values for the general German population. *Qual Life Res*. 2014;23(2):443-7.

130. Krug S, Jordan S, Mensink G, Müters S, Finger J, Lampert T. Körperliche Aktivität. Robert Koch-Institut, Epidemiologie und Gesundheitsberichterstattung; 2013.

131. WHO Guidelines Approved by the Guidelines Review Committee. *Global Recommendations on Physical Activity for Health*. Geneva: World Health Organization

Copyright © World Health Organization 2010.; 2010.

132. Boeker LS, Kuemmerle-Deschner JB, Saur SJ, Klotsche J, Erbis G, Hansmann S. Health-related quality of life, continuity of care and patient satisfaction: long-term outcomes of former patients of the Tuebingen Transition Program (TTP) – a retrospective cohort study. *Pediatric Rheumatology*. 2022;20(1):121.

133. König H-H, Bernert S, Angermeyer MC, Matschinger H, Martinez M, Vilagut G, et al. Comparison of Population Health Status in Six European Countries: Results of a Representative Survey Using the EQ-5D Questionnaire. *Medical Care*. 2009;47(2):255-61.

134. Hazel E, Zhang X, Duffy CM, Campillo S. High rates of unsuccessful transfer to adult care among young adults with juvenile idiopathic arthritis. *Pediatric Rheumatol*. 2010;8:2.

135. McDonagh JE, Shaw KL, Southwood TR. Growing up and moving on in rheumatology: development and preliminary evaluation of a transitional care programme for a multicentre cohort of adolescents with juvenile idiopathic arthritis. *J Child Health Care*. 2006;10(1):22-42.

136. Foster HE, Marshall N, Myers A, Dunkley P, Griffiths ID. Outcome in adults with juvenile idiopathic arthritis: a quality of life study. *Arthritis Rheum*. 2003;48(3):767-75.

137. Cimaz R, Marino A, Martini A. How I treat juvenile idiopathic arthritis: A state of the art review. *Autoimmunity Reviews*. 2017;16(10):1008-15.

138. Wipff J, Sparsa L, Lohse A, Quartier P, Kahan A, Deslandre CJ. Impact of juvenile idiopathic arthritis on quality of life during transition period at the era of biotherapies. *Joint Bone Spine*. 2016;83(1):69-74.
139. Sahin S, Yalcin I, Senel S, Ataseven H, Uslu A, Yildirim O, et al. Assessment life quality of familial Mediterranean fever patients by short form-36 and its relationship with disease parameters. *Eur Rev Med Pharmacol Sci*. 2013;17(7):958-63.
140. Agborsangaya CB, Lahtinen M, Cooke T, Johnson JA. Comparing the EQ-5D 3L and 5L: measurement properties and association with chronic conditions and multimorbidity in the general population. *Health Qual Life Outcomes*. 2014;12:74.
141. Arkela-Kautiainen M, Haapasaari J, Kautiainen H, Vilkkumaa I, Mälkiä E, Leirisalo-Repo M. Favourable social functioning and health related quality of life of patients with JIA in early adulthood. *Ann Rheum Dis*. 2005;64(6):875-80.
142. Gutiérrez-Suárez R, Pistorio A, Cespedes Cruz A, Norambuena X, Flato B, Rumba I, et al. Health-related quality of life of patients with juvenile idiopathic arthritis coming from 3 different geographic areas. The PRINTO multinational quality of life cohort study. *Rheumatology*. 2006;46(2):314-20.
143. Brunner HI, Higgins GC, Wiers K, Lapidus SK, Olson JC, Onel K, et al. Health-related quality of life and its relationship to patient disease course in childhood-onset systemic lupus erythematosus. *J Rheumatol*. 2009;36(7):1536-45.
144. Erhart M, Weimann A, Bullinger M, Schulte-Markwort M, Ravens-Sieberer U. Psychische Komorbidität bei chronisch somatischen Erkrankungen im Kindes- und Jugendalter. *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz*. 2011;54(1):66-74.
145. Knight AM, Trupin L, Katz P, Yelin E, Lawson EF. Depression Risk in Young Adults With Juvenile- and Adult-Onset Lupus: Twelve Years of Followup. *Arthritis Care Res (Hoboken)*. 2018;70(3):475-80.
146. Fair DC, Rodriguez M, Knight AM, Rubinstein TB. Depression And Anxiety In Patients With Juvenile Idiopathic Arthritis: Current Insights And Impact On Quality Of Life, A Systematic Review. *Open Access Rheumatol*. 2019;11:237-52.
147. Lotan M, Merrick J, Carmeli E. Physical activity in adolescence. A review with clinical suggestions. *Int J Adolesc Med Health*. 2005;17(1):13-21.
148. Rochette E, Duché P, Merlin E. Juvenile idiopathic arthritis and physical activity: Possible inflammatory and immune modulation and tracks for interventions in young populations. *Autoimmunity Reviews*. 2015;14(8):726-34.
149. Sandstedt E, Fath A, Fors H, Beckung E. Bone health in children and adolescents with juvenile idiopathic arthritis and the influence of short-term physical exercise. *Pediatr Phys Ther*. 2012;24(2):155-62.
150. Milatz F, Niewerth M, Klotsche J, J. H, D. W, Haas JP, et al. Sport und körperliche Aktivität bei juveniler idiopathischer Arthritis (JIA): ein Vergleich mit Heranwachsenden aus der Allgemeinbevölkerung. *Monatsschrift Kinderheilkunde*. 2021.
151. Limenis E, Grosbein HA, Feldman BM. The Relationship Between Physical Activity Levels and Pain in Children with Juvenile Idiopathic Arthritis. *J Rheumatol*. 2014;41(2):345.
152. Bohr AH, Nielsen S, Müller K, Karup Pedersen F, Andersen LB. Reduced physical activity in children and adolescents with Juvenile Idiopathic Arthritis despite satisfactory control of inflammation. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2015;13:57.
153. Bos GJ, Lelieveld OT, Armbrust W, Sauer PJ, Geertzen JH, Dijkstra PU. Physical activity in children with Juvenile Idiopathic Arthritis compared to controls. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2016;14(1):42.

154. Heale LD, Houghton KM, Rezaei E, Baxter-Jones ADG, Tupper SM, Muhajarine N, et al. Clinical and psychosocial stress factors are associated with decline in physical activity over time in children with juvenile idiopathic arthritis. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2021;19(1):97.
155. Tore NG, Sari F, Saraç DC, Bayram S, Satış H, Karadeniz H, et al. Decreased exercise capacity, strength, physical activity level and quality of life in adult patients with familial Mediterranean fever. *Turk J Med Sci*. 2021;51(4):1712-8.
156. Suris J-C, Akre C. Key Elements for, and Indicators of, a Successful Transition: An International Delphi Study. *J Adolesc Health*. 2015;56(6):612-8.
157. García-Rodríguez F, Raygoza-Cortez K, Moreno-Hernandez L, García-Pérez R, Garza Lopez LE, Arana-Guajardo AC, et al. Outcomes of transitional care programs on adolescent chronic inflammatory systemic diseases: systematic review and meta-analyses. *Pediatric Rheumatology*. 2022;20(1):15.
158. Garvey KC, Wolpert HA, Rhodes ET, Laffel LM, Kleinman K, Beste MG, et al. Health Care Transition in Patients With Type 1 Diabetes: Young adult experiences and relationship to glycemic control. *Diabetes Care*. 2012;35(8):1716-22.
159. Pape L, Lämmermühle J, Oldhafer M, Blume C, Weiss R, Ahlenstiel T. Different models of transition to adult care after pediatric kidney transplantation: A comparative study. *Pediatric Transplantation*. 2013;17(6):518-24.
160. Sattoe JNT, Peeters MAC, Haitsma J, van Staa A, Wolters VM, Escher JC. Value of an outpatient transition clinic for young people with inflammatory bowel disease: a mixed-methods evaluation. *BMJ Open*. 2020;10(1):e033535.
161. van Staa A, Sattoe JN. Young adults' experiences and satisfaction with the transfer of care. *J Adolesc Health*. 2014;55(6):796-803.
162. Shaw KL, Southwood TR, McDonagh JE, BSPAR. Development and preliminary validation of the 'Mind the Gap' scale to assess satisfaction with transitional health care among adolescents with juvenile idiopathic arthritis. *Child Care Health Dev*. 2006;33(4):380-8.
163. Schmidt S, Thyen U, Herrmann-Garitz C, Bomba F, Muehlan H. The Youth Health Care measure-satisfaction, utilization, and needs (YHC-SUN)-development of a self-report version of the Child Health Care (CHC-SUN) proxy-measure. *BMC Health Serv Res*. 2016;16:189.
164. Vidal M, Jansa M, Anguita C, Torres M, Giménez M, Esmatjes E, et al. Impact of a special therapeutic education programme in patients transferred from a paediatric to an adult diabetes unit. *European Diabetes Nursing*. 2004;1(1):23-7.
165. Huang JS, Terrones L, Tompane T, Dillon L, Pian M, Gottschalk M, et al. Preparing adolescents with chronic disease for transition to adult care: a technology program. *Pediatrics*. 2014;133(6):e1639-46.
166. Hilderson D, Corstjens F, Moons P, Wouters C, Westhovens R. Adolescents with juvenile idiopathic arthritis: who cares after the age of 16? *Clin Exp Rheumatol*. 2010;28(5):790-7.
167. van Pelt PA, Dolhain R, Kruize AA, Ammerlaan JJW, Hazes JW, Bijlsma JWJ, et al. Disease activity and dropout in young persons with juvenile idiopathic arthritis in transition of care: a longitudinal observational study. *Clin Exp Rheumatol*. 2018;36(1):163-8.
168. Cadario F, Prodam F, Bellone S, Trada M, Binotti M, Trada M, et al. Transition process of patients with type 1 diabetes (T1DM) from paediatric to the adult health care service: a hospital-based approach. *Clinical Endocrinology*. 2009;71(3):346-50.
169. Hankins JS, Osarogiagbon R, Adams-Graves P, McHugh L, Steele V, Smeltzer MP, et al. A Transition Pilot Program for Adolescents With Sickle Cell Disease. *Journal of Pediatric Health Care*. 2012;26(6):e45-e9.

170. Bitencourt N, Bermas BL, Makris UE, Wright T, Reisch J, Solow EB. Time to Completed Visit and Healthcare Utilization among Young Adults Transferring from Pediatric to Adult Rheumatologic Care in a Safety-Net Hospital. *Arthritis Care Res (Hoboken)*. 2020.
171. Son MB, Sergeyenko Y, Guan H, Costenbader KH. Disease activity and transition outcomes in a childhood-onset systemic lupus erythematosus cohort. *Lupus*. 2016;25(13):1431-9.
172. Hersh AO, Pang S, Curran ML, Milojevic DS, von Scheven E. The challenges of transferring chronic illness patients to adult care: reflections from pediatric and adult rheumatology at a US academic center. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2009;7:13.
173. Shaw KL, Southwood TR, Duffy CM, McDonagh JE. Health-related quality of life in adolescents with juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis Care & Research*. 2006;55(2):199-207.
174. Amine B, Rostom S, Benbouazza K, Abouqal R, Hajjaj-Hassouni N. Health related quality of life survey about children and adolescents with juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatology International*. 2009;29(3):275-9.
175. Toupin April K, Cavallo S, Ehrmann Feldman D, Ni A. The associations among economic hardship, caregiver psychological distress, disease activity, and health-related quality of life in children with juvenile idiopathic arthritis. *Quality of Life Research*. 2012;21(7):1185-91.
176. Del Giudice E, de Roock S, Vastert SJ, Wulffraat NM, Swart JF, van Dijkhuizen EHP. Patients' and parents' satisfaction to improve patient care in JIA: factors determining acceptable symptom state measured with JAMAR. *Rheumatology*. 2023;62(5):1920-5.
177. Shoop-Worrall SJW, Hyrich KL, Wedderburn LR, Thomson W, Geifman N. Patient-reported wellbeing and clinical disease measures over time captured by multivariate trajectories of disease activity in individuals with juvenile idiopathic arthritis in the UK: a multicentre prospective longitudinal study. *Lancet Rheumatol*. 2021;3(2):e111-e21.
178. Nelson MC, Gibson S, Villacis-Nunez DS, Kimi Chan LH, Ponder L, Prahalad S, et al. Quality of life measures and physical activity in childhood systemic lupus erythematosus. *Lupus*. 2022;31(9):1114-20.
179. Azab AR, Kamel FH, Basha MA, Alrawaili SM, Aloraini GS, Hassan SM, et al. Impact of Clinical Pilates Exercise on Pain, Cardiorespiratory Fitness, Functional Ability, and Quality of Life in Children with Polyarticular Juvenile Idiopathic Arthritis. *Int J Environ Res Public Health*. 2022;19(13).
180. Mendonça TM, Terreri MT, Silva CH, Neto MB, Pinto RM, Natour J, et al. Effects of Pilates exercises on health-related quality of life in individuals with juvenile idiopathic arthritis. *Arch Phys Med Rehabil*. 2013;94(11):2093-102.
181. Grøntved A, Ried-Larsen M, Møller NC, Kristensen PL, Froberg K, Brage S, et al. Muscle strength in youth and cardiovascular risk in young adulthood (the European Youth Heart Study). *British Journal of Sports Medicine*. 2015;49(2):90.
182. Schulz KH, Meyer A, Langguth N. Körperliche Aktivität und psychische Gesundheit. *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforschung - Gesundheitsschutz*. 2012;55(1):55-65.
183. Starkie R, Ostrowski SR, Jauffred S, Febbraio M, Pedersen BK. Exercise and IL-6 infusion inhibit endotoxin-induced TNF- α production in humans. *The FASEB Journal*. 2003;17(8):1-10.
184. Ross R, Bradshaw AJ. The future of obesity reduction: beyond weight loss. *Nature Reviews Endocrinology*. 2009;5(6):319-25.

185. Lee J, Dunlop D, Ehrlich-Jones L, Semanik P, Song J, Manheim L, et al. Public health impact of risk factors for physical inactivity in adults with rheumatoid arthritis. *Arthritis Care Res (Hoboken)*. 2012;64(4):488-93.
186. Pediatrics AAO, Physicians AAO, Medicine ACoP-ASoI. A Consensus Statement on Health Care Transitions for Young Adults With Special Health Care Needs. *Pediatrics*. 2002;110(Supplement_3):1304-6.
187. Hilderson D, Westhovens R, Wouters C, Van der Elst K, Goossens E, Moons P. Rationale, design and baseline data of a mixed methods study examining the clinical impact of a brief transition programme for young people with juvenile idiopathic arthritis: the DON'T RETARD project. *BMJ open*. 2013;3(12):e003591.
188. Andemariam B, Owarish-Gross J, Grady J, Boruchov D, Thrall RS, Hagstrom JN. Identification of risk factors for an unsuccessful transition from pediatric to adult sickle cell disease care. *Pediatric Blood & Cancer*. 2014;61(4):697-701.
189. Yassaee A, Hale D, Armitage A, Viner R. The Impact of Age of Transfer on Outcomes in the Transition From Pediatric to Adult Health Systems: A Systematic Review of Reviews. *Journal of Adolescent Health*. 2019;64(6):709-20.

9 Erklärung zum Eigenanteil

Diese Doktorarbeit wurde unter Betreuung von Frau Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner und Dr. med. Sandra Hansmann in der Abteilung Kinderheilkunde I des Universitätsklinikum Tübingen durchgeführt.

Die Studienkonzeption und Entwicklung des Fragebogens erfolgten durch Luca Böker und Dr. med. Sandra Hansmann mit Unterstützung von Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner und Frau Gabriele Erbis.

Die Datenerhebung erfolgte durch Luca Böker in Supervision durch Dr. med. Sandra Hansmann.

Die statistische Auswertung erfolgte durch Luca Böker mit Unterstützung von Dr. med. Sandra Hansmann und PD Dr. rer. nat. Jens Klotsche. Es erfolgte eine statistische Beratung durch Dr. sc. hum. Anette Stauch vom Center for Pediatric Clinical Studies (CPCS) Tübingen.

Abbildungen und Diagramme wurden eigenständig durch Luca Böker erstellt.

Die Verfassung dieser Arbeit erfolgte eigenständig durch Luca Böker mit Beratung durch Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner und Dr. med. Sandra Hansmann.

Teile dieser Doktorarbeit wurden in einem Manuskript zur Veröffentlichung eingereicht und angenommen (s. Kapitel 10 Veröffentlichungen).

Ich versichere, dass ich keine weiteren als die von mir angegebenen Quellen verwendet habe.

Stuttgart, den

10 Veröffentlichungen

Teile der Dissertationsschrift wurden bereits in der folgenden Publikation veröffentlicht:

Luca Samuel Boeker, Jasmin Beate Kuemmerle-Deschner, Sebastian Jonas Saur, Jens Klotsche, Gabriele Erbis, Sandra Hansmann

Health-related quality of life, continuity of care and patient satisfaction: long-term outcomes of former patients of the Tuebingen Transition Program (TTP) – a retrospective cohort study

Pediatric Rheumatology. 2022 Dec 27; 20(1):121. doi: <https://doi.org/10.1186/s12969-022-00776-6>

Folgende Abstracts wurden bereits im Rahmen eines Kongresses für die Veröffentlichung angenommen und präsentiert:

Luca Böker, Jasmin Kümmerle-Deschner, Jens Klotsche, Sandra Hansmann

HEALTH-RELATED QUALITY OF LIFE, CONTINUITY OF CARE AND PATIENT SATISFACTION IN RHEUMATIC DISEASES: HEALTH CARE TRANSITION PROGRAM TUEBINGEN

19.-21.09.2021; 27th European Pediatric Rheumatology Congress (PReS)

Luca Böker, Jasmin B. Kümmerle-Deschner, Jens Klotsche, Sandra Hansmann

Tübinger Transitionsprogramm (TTP) Gesundheitsbezogene Lebensqualität (HR-QoL), Behandlungskontinuität, Patientenzufriedenheit und körperliche Aktivität bei rheumatischen Erkrankungen

06.-09.10.2021; Kongress für Kinder- und Jugendmedizin 2021; Abstract-Nr.: 43652, KV 040

11 Danksagungen

Ich möchte mich bei meiner Doktormutter Frau Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner zuallererst für die Ermöglichung dieser Arbeit in ihrer Abteilung, aber auch für die persönliche und fachliche Unterstützung im Rahmen dieser Arbeit und darüber hinaus bedanken.

Mein Dank gilt ebenso meiner Betreuerin Frau Dr. med. Sandra Hansmann für die zuverlässige und ausdauernde Betreuung zu jeder Zeit. Ohne ihre hilfsbereite und motivierende Ansprache wäre die Arbeit in dieser Form nicht möglich gewesen.

Wie die Patient:innen des TTP habe auch ich vom interdisziplinären Team der Kinderrheumatologie profitiert und möchte mich deswegen bei allen Beteiligten, explizit Frau Gabriele Erbis, Frau Christine Michler und Herrn Sebastian Saur für die herzliche Aufnahme ins Team und das intensive Mitdenken bei der Studienplanung bedanken.

Frau Dr. sc. hum. Anette Stauch danke ich für die statistische Beratung im Voraus.

Herrn PD Dr. rer. nat. Jens Klotsche möchte ich sehr herzlich für die statistische Beratung bei handwerklichen Fragen und Interpretation der Ergebnisse danken.

Abschließend gilt mein Dank natürlich meiner Frau Maren und meinen Eltern, die mich während des Studiums und der Erstellung dieser Arbeit in jeder erdenklichen Weise unterstützt, aufgebaut und motiviert haben. Meine Dankbarkeit für euch ist nicht in Worte zu fassen.