

Wassenaarseweg 56  
2333 AL Leiden  
Postbus 2215  
2301 CE Leiden

[www.tno.nl](http://www.tno.nl)

T +31 88 866 90 00  
F +31 88 866 06 10

## TNO-rapport

**TNO/CH 2014 R10266**

# Wel of niet screenen op scoliose?

Datum	februari 2014
Auteur(s)	Dr. J.A. Deurloo Dr. P.H. Verkerk
Aantal pagina's	19 (incl. bijlagen)
Aantal bijlagen	1
Projectnummer	060.07521/01.04

Alle rechten voorbehouden.

Niets uit deze uitgave mag worden vermenigvuldigd en/of openbaar gemaakt door middel van druk, fotokopie, microfilm of op welke andere wijze dan ook, zonder voorafgaande toestemming van TNO.

Indien dit rapport in opdracht werd uitgebracht, wordt voor de rechten en verplichtingen van opdrachtgever en opdrachtnemer verwezen naar de Algemene Voorwaarden voor opdrachten aan TNO, dan wel de betreffende terzake tussen de partijen gesloten overeenkomst.

Het ter inzage geven van het TNO-rapport aan direct belanghebbenden is toegestaan.

© 2014 TNO

## Inhoudsopgave

<b>1</b>	<b>Inleiding .....</b>	<b>3</b>
1.1	Achtergrond .....	3
1.2	Doelstelling .....	3
<b>2</b>	<b>Methoden .....</b>	<b>4</b>
<b>3</b>	<b>Resultaten .....</b>	<b>5</b>
3.1	De aandoening .....	5
3.2	De test .....	7
3.3	De behandeling.....	8
3.4	Het screeningsprogramma .....	10
<b>4</b>	<b>Samenvatting en conclusies .....</b>	<b>14</b>
<b>5</b>	<b>Literatuur .....</b>	<b>16</b>
	<b>Bijlage(n)</b>	
	A Gebruikte zoekstrategieën	

# 1 Inleiding

## 1.1 Achtergrond

In november 2012 verscheen het rapport 'Een beknopte evaluatie van het Basistakenpakket Jeugdgezondheidszorg' (Deurloo 2012). Dit rapport is geschreven door TNO, het NJi en het NCJ op verzoek van de commissie 'Evaluatie basistakenpakket jeugdgezondheidszorg'. Een onderdeel van dit rapport was de evaluatie van screening op Idiopathische Adolescenten Scoliose (IAS). Het doel van screening op IAS is het vroeg opsporen van IAS, zodat door middel van tijdige conservatieve behandeling een eventuele operatie kan worden voorkomen. De conclusie van de auteurs was: *'Er is enige evidence dat de nadelen van deze screening wel eens groter kunnen zijn dan de voordelen.'* In een reactie hierop heeft de Vereniging van Scoliose patiënten (VSP) bij VWS bezwaar aangetekend (brief d.d. 27-5-2013) tegen de conclusie van het rapport (Deurloo 2012).

In het huidige rapport wordt opnieuw gekeken naar de vraag en is hierbij systematisch naar de stand van de wetenschap gekeken, om na te gaan of een ander conclusie rondom de screening op IAS gerechtvaardigd is.

## 1.2 Doelstelling

Dit rapport is bedoeld om wetenschappelijk onderbouwd antwoord te geven op de volgende vraag: Leidt het huidige beschikbare onderzoek tot een andere conclusie en advies dan nu is weergegeven in het rapport (Deurloo 2012)?

## 2 Methoden

Vanwege het korte tijdsbestek kon in het onderzoek van 2012 niet systematisch naar de literatuur worden gekeken en werd gebruik gemaakt van eerdere rapportages en expertise van betrokkenen op het onderwerp. Voor een goed onderbouwd antwoord, is de aanpak nu gericht op de meest recente criteria voor screening en een intensieve literatuurstudie.

Het UK National Screenings committee heeft criteria opgesteld die kunnen worden gebruikt voor het vaststellen van de uitvoerbaarheid, effectiviteit en geschiktheid van een screeningsprogramma (UK NSC: [www.screening.nhs.uk/criteria#fileid9287](http://www.screening.nhs.uk/criteria#fileid9287)). Idealiter zou aan alle criteria moeten worden voldaan voordat een screeningsprogramma wordt gestart. De resultaten van de (recente) literatuur zijn per criterium beschreven (zie Hoofdstuk 3).

Er is literatuuronderzoek gedaan in PubMed van januari 2009 tot januari 2014. De gebruikte zoekstrategieën zijn vermeld in bijlage 1. Tevens is naar aanvullende artikelen gezocht in de referentielijsten van de gevonden artikelen.

Daarnaast is in de volgende databases gezocht naar recente richtlijnen of publicaties over screening op scoliose:

- GIN (Guidelines International Network)
- NICE (National Institute for Health and Care Excellence)
- Cochrane
- USPSTF (United States Preventive Services Taskforce)

## 3 Resultaten

Hieronder volgen per criterium de resultaten.

### 3.1 De aandoening

#### *1. De aandoening is een aanzienlijk gezondheidsprobleem.*

IAS is een driedimensionale zijdelingse kromming van de wervelkolom. De mate van kromming wordt bepaald door het meten van de Cobbse hoek op een röntgenfoto van de wervelkolom. Internationaal wordt van een scoliose gesproken als de Cobbse hoek  $\geq 10^\circ$  is (Negrini 2012). IAS is een relatief veel voorkomende aandoening. De prevalentie van scoliose met een Cobbse hoek  $\geq 10^\circ$  is in de algemene bevolking is ongeveer 2-3% (Negrini 2012).

Bij progressie en bij een Cobbse hoek tussen  $25^\circ$  en  $45^\circ$  (bij een onrijp skelet) is een bracebehandeling geïndiceerd. Bij verdere progressie ondanks bracebehandeling en bij een Cobbse hoek van  $\geq 45^\circ$ - $50^\circ$  (bij een onrijp skelet) is operatieve correctie geïndiceerd (SRS website, Weinstein 2013).

Aangenomen wordt dat (van de gediagnosticeerde patiënten) ongeveer 10% een conservatieve behandeling (met behulp van een brace) nodig heeft, en ongeveer 0,1-0,3% een operatieve correctie van de aandoening (Negrini 2012). Uitgaande van de algemene populatie gaat het dus om een conservatieve behandeling bij 0,2-0,3% en operatieve correctie bij 0,002-0,009%. In 2008 zijn in Nederland 6.595 scoliosepatiënten in ziekenhuizen behandeld, waarvan er 570 zijn geopereerd (VSP 2009). Dit aantal is hoger dan zou worden verwacht op basis van bovenstaande prevalenties, maar betreft waarschijnlijk niet alleen patiënten met IAS.

Als er bij een volgroeid skelet sprake is van een matige tot ernstige curve (Cobbse hoek  $\geq 30^\circ$ ) is er een toegenomen risico op problemen in het volwassen leven. Dit betreft een verminderde kwaliteit van leven, pijnklachten, functionele beperkingen en soms pulmonale problemen (Pehrsson 1992, Weinstein 2003).

*Conclusie:* IAS is een aanzienlijk gezondheidsprobleem.

#### *2. De epidemiologie en het natuurlijk verloop van de aandoening, inclusief de ontwikkeling van latent tot duidelijk aanwezige ziekte, moeten voldoende duidelijk zijn. Daarnaast moet er een opspoorbare risicofactor, ziektemarker, latente periode of vroege symptomatische fase zijn.*

Over de epidemiologie en het natuurlijk beloop is inmiddels vrij veel bekend.

Progressie van de IAS wordt vaker gezien bij meisjes dan bij jongens (Negrini 2012). Afhankelijk van de Cobbse hoek is er een verschil in de verhouding tussen het aantal aangedane meisjes en jongens (meer meisjes bij grotere Cobbse hoek) (Negrini 2012). Er lijken geografische verschillen te zijn in de prevalentie van IAS, met hogere aantallen in noordelijke landen.

In een deel van de gevonden gevallen van scoliose zal de curve progressie vertonen tot een punt waarop behandeling noodzakelijk is. 5% van de patiënten met een Cobbse hoek van  $>10^\circ$  vertoont progressie tot  $>30^\circ$  (Prujns 1992, Negrini 2006). Als risicofactoren voor progressie van de curve worden onder andere genoemd: leeftijd, geslacht en rijping skelet, en het patroon en de grootte van de

curve. Scoliose die op jonge leeftijd ontstaat, scoliose bij meisjes en scoliose die ontstaat bij een relatief onrijp skelet hebben een groter risico op progressie. Thoracale curves hebben een groter risico op progressie dan lumbale of thoracolumbale curves. In oudere studies is tevens de mogelijkheid van verbetering van de curve beschreven (Rogala 1978, Lonstein 1984). In de recente literatuur is hierover geen informatie gevonden, mogelijk heeft dit te maken met de behandelwijzen tegenwoordig.

Men is nog niet in staat om betrouwbaar te voorspellen welke curves progressief zullen worden. Dit betekent dat, indien na screening een (verdenking op) scoliose óf een milde scoliose wordt vastgesteld, er vaak een traject van controle volgt om vast te stellen of er sprake is van progressie. Het voordeel van een dergelijke controle is dat voorkomen wordt dat kinderen die geen progressie hebben een behandeling ondergaan, en dat kinderen met progressie naar de specifieke afkapwaarde een behandeling krijgen. Het gevolg van de onvoorspelbaarheid van het natuurlijk beloop is dat van tevoren niet kan worden voorspeld welke kinderen progressie zullen gaan vertonen. Men kan dus niet voorspellen welke kinderen in de toekomst een bracebehandeling nodig zullen hebben. Een ander nadeel in het geval er geen sprake is van progressie, is dat ouders en kinderen, achteraf gezien, onnodig ongerust zijn gemaakt. Verder brengt een dergelijk controletraject kosten met zich mee. Aan de andere kant staat dat zonder een screeningsprogramma een deel van de kinderen met een (progressieve) scoliose door het signaleren via andere wegen (ouders, of anderen in de omgeving) naar een arts gaan en op die manier ook behandeld worden.

*Conclusie:* Het natuurlijk beloop van scoliose is niet goed voorspelbaar, waardoor niet kan worden bepaald welke kinderen met een scoliose wel/geen behandeling nodig zullen gaan hebben.

*3. Alle kosteneffectieve primaire preventieve interventies moeten zijn geïmplementeerd voor zover praktisch haalbaar.*

De oorzaak van idiopathische scoliose is onbekend. Het is waarschijnlijk een multifactorieel veroorzaakte aandoening. Primaire preventie lijkt dus geen optie.

Tijdens een overleg bij het NCJ over scoliose is door sommige aanwezigen aangegeven dat onvoldoende beweging en een verkeerde houding, zoals bijvoorbeeld vaak voorkomt bij gamen, mogelijk kan leiden tot scoliose. In de literatuursearch voor dit rapport hebben wij niet kunnen zoeken naar literatuur ter onderbouwing van deze veronderstelling. Indien de veronderstelling klopt dan zouden primaire preventieve maatregelen gericht op meer bewegen en een betere houding een bijdrage kunnen leveren aan de preventie van scoliose.

*Conclusie:* Aangezien de mogelijke aangrijpingspunten voor primaire preventie niet onderbouwd zijn, is het niet mogelijk hier een harde uitspraak over te doen.

*4. Als de dragers van een mutatie worden geïdentificeerd als gevolg van het screenen, moet het natuurlijk beloop van mensen met deze status bekend zijn, inclusief de psychologische gevolgen.*

NVT.

### 3.2 De test

*5. Er moet een eenvoudige, veilige, nauwkeurige en gevalideerde screening test zijn.*

Er zijn verschillende technieken die gebruikt (kunnen) worden voor de screening op IAS bij kinderen. Zo zijn er de Adam's forward bending test (FBT), scoliometer, humpometer, en Moiré topografie. De twee eerstgenoemde testen zijn geschikt voor gebruik in de JGZ, omdat hiervoor relatief weinig tijd en instrumentarium nodig is. Geen van deze technieken zijn diagnostisch. Röntgenfoto's zijn nodig om de diagnose te stellen en de ernst van de afwijking vast te stellen.

De diagnostische waarde van een test kan (onder andere) worden weergegeven met de sensitiviteit (percentage positieve testuitslagen in de groep met de betreffende ziekte), specificiteit (percentage negatieve testuitslagen in de groep die de betreffende ziekte niet heeft) en positief voorspellende waarde (het percentage met de betreffende ziekte in de groep met een positieve testuitslag). De positief voorspellende waarde is sterk afhankelijk van de [prevalentie](#) van de ziekte in de bestudeerde populatie. Voor een screeningsprogramma is het van belang dat de sensitiviteit en de specificiteit van een test voldoende hoog zijn.

In een meta-analyse naar de klinische effectiviteit van scoliose screening (36 studies) werd voor screening op scoliose (met wisselende methodes per studie) een positief voorspellende waarde (PPV) gevonden van 28%, 5,6% en 2,6% voor respectievelijk curves van  $>10^\circ$ ,  $>20^\circ$  en (brace- of operatieve) behandeling (Fong 2010). Geen van de studies rapporteerde de specificiteit van screening op scoliose. Slechts één studie in deze meta-analyse rapporteerde de sensitiviteit van het screeningsprogramma: Yawn et al onderzochten de effectiviteit van jaarlijkse screening in (school)grade 5-9 (ongeveer 10-15 jaar) door middel van de FBT in combinatie met de scoliometer. Zij vonden een sensitiviteit van 64% (95%BI 45% - 83%) voor curves  $\geq 20^\circ$  en 56% (95%BI 23% - 88%) voor behandeling (Yawn 1999). De PPV van 2,6% voor behandeling betekent dat van de 1000 verwezen kinderen er 26 een brace of operatie krijgen, van de overige kinderen wordt een deel onder controle gehouden. De sensitiviteit van 56% voor behandeling betekent dat van de 100 kinderen die (op termijn) behandeling nodig hebben er 44 worden gemist door de screening.

Uit de meta-analyse van Fong et al bleek een duidelijk hoger verwijsperscentage in studies waarbij alleen de FBT werd gebruikt voor screening, in vergelijking met studies waarbij ook andere screeningmethoden werden gebruikt (de angle of trunk rotation (ATR, gemeten m.b.v. een scoliometer) en/of Moiré topografie), namelijk 7,2% vs. 2,6%. Tevens vonden zij bij screening met alleen de FBT een lagere PPV voor curves  $>10^\circ$  (23,2% vs. 38%) en  $>20^\circ$  (3,5 % vs. 11,0%) (Fong 2010).

Op basis van een systematische review en de mening van deskundigen concluderen Labelle et al dat het gebruik van de FBT in combinatie met de scoliometer (afkapwaarde tussen de 5-7°) voor screeningsdoeleinden de voorkeur heeft (Labelle 2013).

*Conclusie:* De voor de JGZ beschikbare screeningstest is onvoldoende valide.

*6. De verdeling van testwaarden in de doelpopulatie moet bekend zijn, en een geschikte afkapwaarde moet zijn bepaald en overeengekomen.*

Er zijn geen afkappunten bekend voor FBT die een hoge sensitiviteit en een hoge specificiteit hebben.

*7. De test moet acceptabel zijn voor de bevolking.*

Hier is, voor zover ons bekend, geen onderzoek naar gedaan, maar gezien de niet-invasieve aard van de FBT (eventueel gecombineerd met de scoliometer) is de verwachting dat de test acceptabel is voor de bevolking. Dit is ook de ervaring van de JGZ professionals die deze test uitvoeren of hebben uitgevoerd.

*Conclusie:* de test is acceptabel.

*8. Er zou een duidelijk beleid moeten zijn met betrekking tot het verdere diagnostisch onderzoek van personen met een positief testresultaat en de keuzes die deze personen kunnen maken.*

Bij een positief screeningsresultaat zal een röntgenfoto van de wervelkolom worden gemaakt, ter bepaling van de Cobbse hoek. Dit onderzoek is momenteel de gouden standaard voor het stellen van de diagnose. Zie voor de afkapwaarden het voorgaande punt 6.

*Conclusie:* Hoewel het diagnostisch beleid bij een positief screeningsresultaat duidelijk is, zijn de afkapwaarden voor een positief screeningsresultaat onduidelijk.

*9. Als er op mutaties wordt getest, moeten de criteria waarop een subset van mutaties wordt bepaald die wordt gedekt door screening duidelijk zijn vastgesteld (als niet alle mogelijke mutaties worden getest).*

NVT.

### **3.3 De behandeling**

*10. Er moet een effectieve behandeling of interventie zijn voor patiënten geïdentificeerd door middel van screening, met bewijs dat vroege behandeling leidt tot betere resultaten dan late behandeling.*

De meest gebruikte methoden van conservatieve behandeling ter voorkoming van progressie van de curve bij IAS zijn oefentherapie en bracebehandeling. Oefentherapie wordt over het algemeen ingezet voor de 'mildere' curves, maar is niet overal in de wereld een gebruikelijke en geaccepteerde behandeling (Romano 2012).

Oefentherapie kan worden onderverdeeld in algemene fysiotherapie en scoliose-specifieke oefeningen (scoliosis specific exercises, SSE). In een Cochrane review komen de auteurs tot de conclusie dat er geen bewijs van hoge kwaliteit is om het gebruik van SSE bij IAS aan te bevelen. Er waren slechts twee studies die aan de inclusiecriteria voldeden en er was een hoog risico op (vooral selectie-)bias in deze studies. SSE als op zichzelf staande therapie gaf ongeveer dezelfde kans op bracebehandeling als algemene fysiotherapie: risk ratio (RR) 0,24 (95% CI 0,06 – 1,04) (Romano 2012). In de richtlijn van de Scientific Society on Scoliosis Orthopaedic and Rehabilitation Treatment (SOSORT) uit 2011 worden 'physiotherapeutic specific exercises' wel aanbevolen als eerste stap in de



behandeling van IAS, omdat patiënten zich prettiger voelen bij iets doen, dan niets doen (Negrini 2012).

Bij de behandeling van IAS met behulp van een brace wordt, door het uitoefenen van druk op de romp, de stand van de wervelkolom gecorrigeerd. Over de effectiviteit van bracebehandeling ter voorkoming van een chirurgische ingreep is de afgelopen decennia veel gediscussieerd. In 2010 is een Cochrane systematische review verricht naar het effect van bracebehandeling (Negrini 2010). De auteurs vonden bewijs van zeer lage kwaliteit ten gunste van bracebehandeling. Er waren slechts twee studies die aan de inclusiecriteria voldeden, in beide studies waren alleen meisjes geïnccludeerd waardoor generalisatie naar jongens lastig is.

Recent zijn de resultaten van een RCT naar de effectiviteit van bracebehandeling in vergelijking met observatie gepubliceerd (Weinstein 2013). Patiënten met een hoog-risico IAS met een indicatie voor bracebehandeling werden geïnccludeerd. In het artikel wordt de definitie van 'hoog risico' niet nader gespecificeerd. Deze studie is opgezet als een gerandomiseerde trial. Slechts een beperkt deel van de patiënten wilden echter aan randomisatie meewerken vanwege duidelijke patiëntvoorkeuren voor bracebehandeling ten opzichte van een afwachtend beleid. Om deze reden is een voorkeursgroep toegevoegd: patiënten die in aanmerking kwamen voor randomisatie maar zelf voor bracebehandeling kozen. De studie werd vroegtijdig afgebroken vanwege de gunstige resultaten: bij bracebehandeling werd vaker een volledige skeletrijping bereikt zonder progressie van de curve tot  $\geq 50^\circ$ , dan zonder brace behandeling. Een succesvolle uitkomst (volledige rijping van het skelet zonder het bereiken van een curve  $\geq 50^\circ$ ) werd bereikt in 72% van de brace-groep en in 48% van de observatiegroep. De OR voor succesvolle uitkomst met brace was 1,93 (95%BI 1,08-3,46). Bracebehandeling is dus effectiever dan alleen observatie voor het voorkomen van progressie van de curve tot  $\geq 50^\circ$ . Echter, ook in de groep zonder bracebehandeling bereikte een belangrijk deel (48%) een succesvolle uitkomst. Bij intention-to-treat analyse van de gerandomiseerde groep werd een succesvolle uitkomst bereikt in 75% van brace-groep en in 42% observatiegroep (OR 4,1; 95%BI 1,85-9,16). Het number needed to treat (NNT) om 1 geval van chirurgie te voorkomen was 3,0 (95%BI 2,0-6,2), de reductie in relatief risico (RR) met brace 56% (95%BI 26%-82%). De auteurs concluderen dat het dragen van een brace de toename van hoog-risico curves tot een indicatie voor chirurgie significant verminderd bij IAS, en dat patiënten met een hoog risico op een klinisch significante curve toename het meeste voordeel zullen hebben van bracebehandeling.

Een belangrijk aspect voor de effectiviteit van bracebehandeling is de therapietrouw. Er lijkt een positieve correlatie te bestaan tussen de therapietrouw en het effect van de behandeling (Rahman 2005, Katz 2010, Weinstein 2013). In de literatuur wordt gemeld dat de therapietrouw niet groot is, braces worden zo'n 45-75% van de voorgeschreven tijd gedragen (Schlenzka 2013). Bij één onderzoek bleek dat de brace maar 10% van de voorgeschreven tijd gedragen werd (Dickson 1999). In de algemene klinische praktijk is de therapietrouw mogelijk lager dan in bovengenoemde RCT het geval was. In de praktijk zal het gunstige effect van bracebehandeling daarom weleens minder groot kunnen zijn dan de studie van Weinstein aangeeft.

*Conclusie:* Er is geen bewijs van hoge kwaliteit om het gebruik van SSE bij IAS aan te bevelen. Er lijkt voldoende bewijs te zijn ten gunste van bracebehandeling, waarbij therapietrouw een aandachtspunt moet zijn.

*11. Er moet een overeengekomen evidence based beleid zijn over welke personen behandeling moet worden aangeboden, en welke behandeling dan aan te bieden.*

Zie punt 10.

*12. De klinische behandeling van de aandoening en de patiëntuitkomsten moet optimaal zijn bij alle zorgaanbieders voorafgaand aan deelname aan een screeningsprogramma.*

De huidige search was niet gericht op het beantwoorden van deze vraag. Hierover kunnen wij dus geen uitspraak doen.

### 3.4 Het screeningsprogramma

*13. Er moet bewijs zijn uit Randomised Controlled Trials van hoge kwaliteit dat het bevolkingsonderzoek effectief is in het verminderen van mortaliteit of morbiditeit.*

Er zijn geen RCT's gedaan naar de effectiviteit van het screenen op scoliose. Er is een studie uitgevoerd die qua bewijskracht in de buurt komt van een RCT op screenen (Bunge 2008). Hierbij is gebruik gemaakt van het feit dat in Nederland een natuurlijk experiment heeft plaatsgevonden. Door sommige GGD 's werd wel gescreend op scoliose en in andere niet. Met behulp van een case-controle studie hebben Bunge et al de effectiviteit van screening op IAS onderzocht door 108 operatief behandelde patiënten te vergelijken met 216 'gezonde' controles zonder scoliose, gematched op geslacht en leeftijd (Bunge 2008). De auteurs hebben de effecten van screening op bracebehandeling in een eerdere studie beschreven (Bunge 2006). Met deze case-controle studie is de effectiviteit van het hele screeningstraject onderzocht van screeningstest, diagnostiek en behandeling. Voor de hele studiegroep is onderzocht of zij een screening op scoliose hebben ondergaan. Patiënten die met screening zijn ontdekt waren jonger ten tijde van diagnose t.o.v. anderszins ontdekte patiënten ( $10,8 \pm 2,6$  vs.  $13,4 \pm 1,7$  jaar), en hadden een kleinere Cobbse hoek bij diagnose. Patiënten die met screening waren ontdekt hadden een grotere kans om met een brace te worden behandeld t.o.v. anderszins ontdekte patiënten (OR 3,1; 95%BI 1,3-7,0). In tegenstelling tot wat verwacht zou worden waren meer cases dan controles gescreend: 80,5% van de cases had screening ondergaan versus 74% van de controles (OR 1,44; 95%BI: 0,77-2,68;  $p=0,25$ ). De auteurs hebben ook naar de leeftijd van screening gekeken, omdat tussen 11 en 14 jaar het juiste moment van screenen lijkt te zijn. 32,8% van de cases had screening ondergaan op de leeftijd van 11 t/m 14 jaar versus 43,4% van de controles (OR 0,64; 95%BI: 0,34-1,19;  $p=0,16$ ). Dit verschil was niet significant. De auteurs concluderen dat screening de kans op operatie niet verkleint. Verder zijn er wel meer jaren van zorg en is er vaker sprake van bracebehandeling. De auteurs stellen dat de screening daarom beter kan worden afgeschaft.

In een Noorse studie heeft men een serie patiënten die behandeld werd in een periode zonder screening (2003-2011) vergeleken met een serie patiënten behandeld in een periode met screening (1976-1988)(Adobor 2012). Helaas heeft dit onderzoeksdesign allerlei beperkingen zoals de betreffende onderzoekers in het artikel ook zelf aangeven. Verder liggen beide perioden behoorlijk ver uiteen in de

tijd. De onderzoekers geven daarom ook zelf aan dat de oorzaak van de gevonden verschillen in het aantal operaties behalve door het stopzetten van de screening natuurlijk ook door andere factoren verklaard kunnen worden. Zo geven zij zelf nog de volgende verklaringen:

- In de loop van de tijd kan ook de doktersdelay zijn toegenomen.
- In de loop van de tijd zijn er technische verbeteringen gekomen in operatietechnieken en daarnaast kan de attitude van de chirurgen zijn veranderd.
- Verschillen in registratiewijzen in de loop van de jaren.

Onder andere in verband met bovengenoemde redenen stellen de auteurs daarom het volgende: "In view of the methodological weaknesses and other limitations which the authors clearly acknowledge in the manuscript, the results of the comparison of the rate of brace and surgery treatments during the two periods should be interpreted with caution."

*Conclusie:* Er zijn geen RCT's gedaan naar de effectiviteit van het screenen op IAS. Uit een case-controle studie blijkt dat screening de kans op operatie niet verkleint.

*14. Er moet bewijs zijn dat het volledige screening programma (test, diagnostiek, behandeling/interventie) klinisch, sociaal en ethisch aanvaardbaar is voor professionals en het publiek.*

In de literatuur is al jarenlang een discussie gaande over de noodzaak en het nut van screening op IAS (Plaszewski 2012, Grivas 2013). Zo zijn er duidelijke voorstanders maar ook tegenstanders van een dergelijke screening. Hieruit trekken wij de conclusie dat het screeningsprogramma niet voor iedereen aanvaardbaar is.

*15. Het voordeel van het screeningsprogramma moet opwegen tegen de fysieke en psychische schade (veroorzaakt door de test, diagnostiek en behandeling).*

De screeningstest zelf heeft weinig tot geen nadelige effecten. Voor jongeren met een positieve uitslag zijn er echter wel nadelige gevolgen, zoals de zorgen over het hebben van een (eventuele) afwijking en het ondergaan van aanvullende onderzoeken (Dickson 1999, NHMRC 2002). Tevens kan een negatieve screeningsuitslag een vals gevoel van geruststelling en veiligheid creëren, waardoor patiënten die niet gesignaleerd zijn bij een screening soms te laat zelf actie ondernemen.

De conservatieve behandeling met een brace kan nadelige gevolgen hebben op het zelfbeeld, de relaties met leeftijdsgenoten en de kwaliteit van leven, in de literatuur worden hierover echter wisselende resultaten gerapporteerd (Reichesi 2003, Vasiliadis 2006, Weiss 2007, Aulisa 2010). In de Cochrane review naar de effectiviteit van bracebehandeling werden problemen beschreven met warmte onder de brace, toiletbezoek en het aan- en uitdoen van de brace (Negrini 2010).

In de recent gepubliceerde studie van Weinstein et al worden geen verschillen gerapporteerd in 'adverse events' tussen de groep met bracebehandeling en de observatiegroep (Weinstein 2013). Er was 1 opname in verband met angst en depressie bij een patiënt met een brace, en 8% van de patiënten met een brace (12/146) rapporteerden huidproblemen. Het feit dat de therapietrouw van de bracebehandeling laag is, kan er op wijzen erop dat deze behandeling als onaangenaam wordt ervaren (Dickson 1999, Vasiliadis 2006, Schlenzka 2013).

*Conclusie:* Er zijn nadelige gevolgen van het screeningsprogramma, onder andere als gevolg van het hoge aantal fout-positieven en fout-negatieven en de conservatieve behandeling van scoliose.

*16. De kosten van het screeningsprogramma (inclusief testen, diagnostiek en behandeling, administratie, opleiding en kwaliteitsborging) moeten economisch in evenwicht zijn met de uitgaven voor medische zorg als geheel. Onderzoek naar dit criterium zou aandacht moeten hebben voor het bewijs van kosten-baten en/of kosteneffectiviteit analyses en rekening houden met het effectieve gebruik van de beschikbare middelen.*

In diverse studies naar de effectiviteit van screening op IAS is gekeken naar de kosteneffectiviteit van het programma. Voor het weergeven van de kosten in verhouding tot de baten kan gebruik worden gemaakt van Quality Adjusted Life Years (QALY's). Dit zijn gewonnen levensjaren die voor kwaliteit van leven worden gecorrigeerd. Een gewonnen levensjaar van goede kwaliteit heeft een hogere waarde dan een gewonnen levensjaar met minder goede kwaliteit. Voor zover wij weten zijn geen studies gepubliceerd waarin het aantal gewonnen QALY's is onderzocht met screening op IAS ten opzichte van niet screenen.

Binnenkort wordt een systematische review gepubliceerd (Ehrmann Feldman 2014). Hierin werden 7 studies geïncludeerd, er werden geen RCT's gevonden. De kosten per gescreend kind (inclusief follow-up en behandeling) varieerden van \$0,62 tot \$61,03. De grote variatie in kosten werd verklaard door kwalificaties en salarisschalen van screeners, het soort screening, afkappunten voor het bepalen van de diagnose en de kosten van medische controles en onderzoeken. De auteurs concluderen dat op basis van de huidige kennis geen uitspraak gedaan kan worden over het al dan niet kosteneffectief zijn van screening op IAS.

Over de situatie in Nederland schrijven Bunge et al het volgende: "als we er van uit gaan dat de gevonden OR van 0,64 het ware effect is, dan zijn de geschatte kosten voor het voorkomen van een operatieve ingreep bij 1 patiënt (ten minste) €130.000, en zouden ongeveer 5.800 kinderen moeten worden gescreend. Dit zijn relatief hoge kosten en inspanningen, gezien het feit dat ernstige scoliose niet vaak voorkomt en niet dodelijk is. Tevens identificeert screening een aantal kinderen die uiteindelijk behandeling nodig hebben, maar het resulteert ook in de verwijzing van nog veel meer kinderen die geen behandeling nodig hebben. Om deze reden zijn de kosten een onderschatting van de werkelijkheid, omdat de kosten van artsenbezoek en röntgenfoto's van de fout-positieve gevallen niet zijn meegerekend" (Bunge 2008).

Yawn et al hebben berekend dat de screeningskosten voor het vinden van 1 kind dat (conservatief of operatief) moet worden behandeld voor scoliose \$10.836 bedragen (Yawn 1999).

*Conclusie:* De kosten per gescreend kind zijn erg afhankelijk van variabelen zoals het soort screening en de uitvoerders van de screening. De screeningskosten per kind dat moet worden behandeld in verband met scoliose lijken hoog.

*17. Alle andere opties voor de aanpak van de aandoening moeten zijn overwogen (bijv. verbetering van de behandeling), om ervoor te zorgen dat er geen meer kosteneffectieve interventie kan worden ingevoerd of dat bestaande interventies kunnen worden verbeterd binnen de beschikbare middelen.*

De huidige search was niet gericht op het beantwoorden van deze vraag. Hierover kunnen wij dus geen uitspraak doen.

*Conclusie:* Nader onderzoek is nodig.

*18. Er moet een plan voor het beheer van en het toezicht op het screeningsprogramma zijn, en een overeengekomen set van normen voor kwaliteitsborging.*

Een dergelijk plan is er voor Nederland (nog) niet. In een expert opinie artikel dat pleit voor de (her)invoering van screening op IAS worden wel suggesties gedaan om het screeningsprogramma zo optimaal mogelijk in te richten (Grivas 2013).

*19. Voor de aanvang van het screeningsprogramma moet er voldoende personeel en faciliteiten beschikbaar zijn voor het screenen, diagnostiek, behandeling en programmamanagement.*

De huidige search was niet gericht op het beantwoorden van deze vraag. Hierover kunnen wij dus geen uitspraak doen.

*Conclusie:* Nader onderzoek is nodig.

*20. Evidence-based informatie, uitleg over de gevolgen van het testen, onderzoek en behandeling, moet voor potentiële deelnemers beschikbaar zijn om hen te helpen bij het maken van een weloverwogen keuze.*

Dergelijke informatie is er voor Nederland (nog) niet.

*21. Met druk vanuit de bevolking voor het verbreden van de screening (zowel in criteria als in interval of frequentie) en voor het verhogen van de gevoeligheid van het screeningsproces, moet rekening worden gehouden. Beslissingen over deze parameters moeten wetenschappelijk verantwoord zijn voor het publiek.*

Op dit moment ontbreekt het aan onderbouwde informatie hoe vaak en op welke leeftijden screening op scoliose uitgevoerd zou moeten worden.

*22. Als er wordt gescreend op een mutatie dan dient het programma aanvaardbaar te zijn voor mensen geïdentificeerd als dragers en andere familieleden.*

NVT.

## 4 Samenvatting en conclusies

Screening op scoliose beoogt het vroegtijdig opsporen van kinderen met een scoliose, met als doel het zo vroeg mogelijk starten van conservatieve behandeling om progressie van de curve en daarmee een operatieve ingreep te voorkomen. Om een screeningsprogramma effectief te laten zijn, moet aan diverse voorwaarden worden voldaan. Wil een screeningsprogramma effectief zijn dan is het o.a. belangrijk dat: mensen willen deelnemen, er een goede test is, er een goede behandeling is en mensen bereid zijn de behandeling te ondergaan. Daarnaast moet ook gelden dat screenen leidt tot eerdere behandeling en dat deze eerdere behandeling leidt tot een gunstiger resultaat in vergelijking met niet screenen.

Hieronder vatten we 4 aspecten samen: de aandoening, de screeningstest, de behandeling en het screeningsprogramma.

Met betrekking tot *de aandoening* kan gesteld worden dat het een relatief veel voorkomende aandoening is (2-3%), waarbij 10% van de patiënten conservatieve behandeling nodig heeft en ongeveer 0,1-0,3% operatieve correctie behoeft. Men is echter nog niet in staat om betrouwbaar te voorspellen welke curves progressief zullen worden. Dit betekent dat, indien na screening een (verdenking op) scoliose wordt vastgesteld, er vaak een traject van controle zal moeten volgen alvorens eventueel tot behandeling wordt overgegaan. Vanwege het natuurlijk verloop is op basis van de literatuur ook geen eenduidige conclusie te trekken over de leeftijd waarop gescreend moet worden.

*Conclusie:* Mede door het onvoorspelbare natuurlijke verloop lijkt het niet mogelijk om de juiste leeftijd voor screening vast te stellen en is het vanuit screening niet te voorspellen welke patiënten met scoliose behandeling behoeven.

De in de JGZ gehanteerde *screeningstest* (FBT, eventueel in combinatie met scoliometer) heeft een lage positief voorspellende waarde van 2,6% (voor conservatieve of operatieve behandeling) en een sensitiviteit van 56% (voor conservatieve of operatieve behandeling). Dit betekent dat er veel jongeren onterecht verwezen worden voor verder onderzoek. Van de 1000 verwezen kinderen zullen er 26 een brace of operatie krijgen, en van de overige kinderen wordt een deel onder controle gehouden. Dit leidt tot onnodige ongerustheid en onnodige kosten. Tevens worden van de 100 kinderen die (op termijn) behandeling nodig hebben er 44 gemist door de screening. Deze 44% wordt dus ten onrechte gerustgesteld. Dit kan ertoe leiden dat zij hierdoor later hulp gaan zoeken dan zonder screening het geval zou zijn geweest.

*Conclusie:* De screeningstest voor de JGZ is onvoldoende valide.

Over *de behandeling* van IAS is de afgelopen jaren veel discussie geweest. Uit systematische reviews blijkt dat er een beperkt aantal studies van voldoende kwaliteit is naar de effectiviteit van de conservatieve behandeling van IAS. Deze studies leveren vervolgens geen (scoliose-specifieke oefeningen) of beperkt (brace behandeling) bewijs ten gunste van conservatieve behandeling. Met de recente publicatie over de effecten van bracebehandeling is het bewijs voor het effect van deze behandeling versterkt.

*Conclusie:* De conservatieve behandeling van scoliose door middel van bracebehandeling is waarschijnlijk effectief.

Naar het *screeningsprogramma* zijn veel onderzoeken verricht. Er zijn echter geen RCT's bekend. Internationaal zijn er grote verschillen in gebruikte screeningstesten, de uitvoerders van het onderzoek en de leeftijd en het geslacht van de onderzochte individuen, waardoor de bruikbaarheid van studies voor Nederland beperkt is. In een quasi experimentele Nederlandse studie is de effectiviteit van het hele screeningsprogramma (van test tot behandeling) onderzocht. Hieruit bleek dat screening niet effectief is. Verder zijn er als gevolg van screening wel meer jaren van zorg en is er vaker sprake van bracebehandeling.

*Conclusie:* Het screeningsprogramma is mogelijk niet effectief, mogelijk als gevolg van de lage validiteit van de test en het moeilijk te voorspellen natuurlijk beloop. Daarnaast zijn er duidelijke nadelen onder andere als gevolg van het hoge aantal fout-positieven en fout-negatieven.

Voordat een screeningsprogramma ingevoerd kan worden dient er voldoende evidence te zijn dat de voordelen opwegen tegen de nadelen. Op basis van het huidige literatuuronderzoek blijkt dat niet aan alle voorwaarden voor een effectief screeningsprogramma wordt voldaan. We bevelen aan om de screening op scoliose niet opnieuw in te voeren.

## 5 Literatuur

- Adobor RD, Riise RB, Sørensen R, Kibsgård TJ, Steen H, Brox JI. Scoliosis detection, patient characteristics, referral patterns and treatment in the absence of a screening program in Norway. *Scoliosis* 2012, 7: 18-26.
- Aulisa AG, Guzzanti V, Perisano C, Marzetti E, Specchia A, Galli M, Giordano M, Aulisa L. Determination of quality of life in adolescents with idiopathic scoliosis subjected to conservative treatment. *Scoliosis* 2010, 5: 21-27.
- Bunge EM, Juttmann RE, de Koning HJ, and the steering committee of the NESIO group. Screening for scoliosis: do we have indications for effectiveness? *J Med Screen* 2006, 13: 29-33.
- Bunge EM, Juttmann RE, van Biezen FC, Creemers H, Hazebroek-Kampschreur AAJM, Luttmmer BCF, et al. Estimating the effectiveness of screening for scoliosis: a case-control study. *Pediatrics* 2008, 121(1): 9-14.
- Deurloo JA, van Rooijen K, Beckers M, Dunnink T, Verkerk PH. Een beknopte evaluatie van het Basistakenpakket Jeugdgezondheidszorg. TNO Child Health TNO/CH 2012 P10426, Leiden, 2012.
- Dickson RA, Weinstein SL. Bracing (and screening) – yes or no? *J Bone Joint Surg* 1999, 81-B: 193-198.
- Ehrmann Feldman D, Beausejour M, Felix Sosa J, Goulet L, Parent S, Labelle H, et al. Cost effectiveness of school screening for scoliosis: A systematic review. *Int J Child Adolesc Health* 2014;7(1): 00-00.
- Fong DYT, Lee CF, Cheung KMC, Cheng JCY, Ng BKW, Lam TP, et al. A meta-analysis of the clinical effectiveness of school scoliosis screening. *Spine* 2010, 35(10): 1061-1071.
- Grivas TB, Hresko MT, Labelle H, Price N, Kotwicki T, Maruyama T. The pendulum swings back to scoliosis screening: screening policies for early detection and treatment of idiopathic scoliosis – current concepts and recommendations. *Scoliosis* 2013, 8: 16-24.
- Katz DE, Herring JA, Browne RH, Kelly DM, Birch JG: Brace wear control of curve progression in adolescent idiopathic scoliosis. *J Bone Joint Surg Am* 2010, 92(6): 1343-1352.
- Labelle H, Richards SB, de Kleuver M, Grivas TB, Luk KD, Wong HK, et al. Screening for adolescent idiopathic scoliosis: an information statement by the scoliosis research society international task force. *Scoliosis* 2013, 8: 17-22.
- Lonstein JE, Carlson JM. The prediction of curve progression in untreated idiopathic scoliosis during growth. *J Bone Joint Surg Am* 1984, 66(7): 1061-1071.
- Negrini S, Grivas TB, Kotwicki T, Maruyama T, Rigo M, Weiss HR. Why do we treat adolescent idiopathic scoliosis? What we want to obtain and to avoid for our patients. *SOSORT 2005 Consensus paper*. *Scoliosis* 2006, 1: 4.
- Negrini S, Minozzi S, Bettany-Saltikov J, Zaina F, Chockalingam N, Grivas TB, et al. Braces for idiopathic scoliosis in adolescents. *Spine* 2010, 35(13): 1285-1293.
- Negrini S, Aulisa AG, Aulisa L, Circo AB, de Mauroy JC, Durmula J, et al. 2011 SOSORT Guidelines: Orthopaedic and rehabilitation treatment of idiopathic scoliosis during growth. *Scoliosis* 2012, 7: 3.



- NHMRC (National Health and Medical Research Council). Child Health Screening and surveillance: a critical review of the evidence. Melbourne: Centre for Community Child Health, Royal Children's Hospital. 2002, 137-144.
- Pehrsson K, Larsson S, Oden A, Nachemson A. Long-term follow-up of patients with untreated scoliosis. A study of mortality, causes of death and symptoms. *Spine (Phila Pa 1976)* 1992, 17(9): 1091-1096.
- Plaszewski M, Nowobilski R, Kowalski P, Cieslinski M. Screening for scoliosis: different countries' perspectives and evidence-based health care. *Int J Rehab Res* 2012, 35(1): 13-19.
- Pruijs JE, Keessen W, Van der Meer R, Van Wieringen JC, Hageman MA. School screening for scoliosis: methodologic considerations. Part 1: External measurements. *Spine* 1992, 17: 431-436.
- Rahman T, Bowen JR, Takemitsu M, Scott C: The association between brace compliance and outcome for patients with idiopathic scoliosis. *J Pediatr Orthop* 2005, 25(4): 420-422.
- Reichesi D, Schanz J. Developmental psychological aspects of scoliosis treatment. *Pediatr Rehabil* 2003, 6: 221-225.
- Rogala EJ, Drummond DS, Gurr J. Scoliosis: incidence and natural history. A prospective epidemiological study. *J Bone Joint Surg Am* 1978, 60(2): 173-176.
- Romano M, Minozzi S, Bettany-Saltikov J, Zaina F, Chockalingam N, Kotwicki T, et al. Exercises for adolescent idiopathic scoliosis. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2012, Issue 8. Art. No.: CD007837. DOI: 10.1002/14651858.
- Schlenzka D, Yrjönen T. Bracing in adolescent idiopathic scoliosis. *J Child Orthop* 2013, 7: 51-55.
- SRS website:  
[http://www.srs.org/professionals/conditions\\_and\\_treatment/adolescent\\_idiopathic\\_scoliosis/treatment.htm](http://www.srs.org/professionals/conditions_and_treatment/adolescent_idiopathic_scoliosis/treatment.htm). Bezocht op 3-2-2014.
- Vasiliadis E, Grivas TB, Savvidou O, Triantafyllopoulos G: The influence of brace on quality of life of adolescents with idiopathic scoliosis. *Stud Health Technol Inform* 2006, 123: 352-356.
- Vereniging van scoliosepatiënten. Rapport 'Behandeling scoliosepatiënten ziekenhuizen 2008', 2009.
- Weinstein SL, Dolan LA, Spratt KF, Peterson KK, Spoonamore MJ, Ponseti IV. Health and function of patients with untreated idiopathic scoliosis: a 50-year natural history study. *JAMA* 2003 289(5): 559-567.
- Weinstein SL, Dolan LA, Wright JG, Dobbs MB. Effects of bracing in adolescents with idiopathic scoliosis. *N Engl J Med* 2013, 369(16): 1512-1521.
- Weiss HR, Werkmann M, Stephan C: Brace related stress in scoliosis patients- Comparison of different concepts of bracing. *Scoliosis* 2007, 2: 10.
- Yawn BP, Yawn RA, Hodge D, Kurland M, Shaughnessy WJ, Ilstrup D, et al. A population based study of school scoliosis screening. *JAMA* 1999, 282: 1427-1432.



## A Gebruikte zoekstrategieën

### Search 1:

```

((((("predictive value of tests"[MeSH Terms]) OR "mass screening"[MeSH Terms])
OR reproducibility of results[MeSH Terms]) OR (("referral and consultation"[MeSH
Terms]))) OR "treatment outcome"[MeSH Terms])) AND
((((((((("scoliosis/prevention and control"[MeSH Terms])) OR
"scoliosis/diagnosis"[MeSH Terms])) OR (("scoliosis/prevention and control"[MeSH
Terms])) OR "scoliosis/diagnosis"[MeSH Terms])) OR (("adolescent idiopathic
scoliosis"[Title/Abstract]) AND screening[Title/Abstract])) AND
(("scoliosis/prevention and control"[MeSH Terms])) OR "scoliosis/diagnosis"[MeSH
Terms])) OR (((((adolescent) AND scoliosis) AND idiopathic)) AND (((screening) OR
"screening tests" OR detection)))) OR (("scoliosis"[MeSH Terms]) AND "early
diagnosis"[MeSH Terms])) OR (("adolescent idiopathic scoliosis") AND (screening
OR detection)))) AND (("adolescent"[MeSH Terms]) OR (adolescents OR
adolescent[Title/Abstract]))

```

383 resultaten

Filters: Meta-Analysis, Systematic Reviews, 5 years

19 resultaten

### Search 2:

```

("adam's forward bending test") OR "forward bending test"

```

7 resultaten