

## ORGANISATIE VAN ZORG

# Patiënten en dokters maken samen een onderzoeksagenda

## DE METHODE VAN DE BRITSE JAMES LIND ALLIANCE

Casper Schoemaker, Berent Prakken en Eric van Furth

**De Britse James Lind Alliance (JLA) ontwikkelde een methode om behandelaars, patiënten en familieleden samen een onderzoeksagenda op te laten stellen voor een ziekte of behandelvorm. In een ‘priority setting partnership’ stellen ze stapsgewijs een top-10 op van de belangrijkste onbeantwoorde onderzoeksvragen. De inbreng van patiënten en hun naasten in de prioritering weegt daarbij even zwaar als die van behandelaars. Tot nu toe zijn er ruim 50 van deze top-10'en gemaakt, waarvan één in Nederland. De JLA-methode combineert elementen van de twee zeer verschillende methoden die op dit moment gangbaar zijn in Nederland: het dialoogmodel, ontwikkeld door de VU, en de ‘agenda zorgevaluatie’, ontwikkeld door de Federatie van Medisch Specialisten. De JLA-methode is goed uitvoerbaar en leidt tot nieuwe onderzoeksvragen. Het grootste voordeel is dat ze leidt tot een dialoog tussen makers en gebruikers van kennis over wat de relevante onderzoeksvragen zijn.**

**M**edisch wetenschappelijk onderzoek zou zorgverleners en patiënten moeten helpen bij het nemen van belangrijke beslissingen in de spreekkamer. Het overgrote deel van het medische onderzoek blijkt daar echter niet geschikt voor te zijn, zo concludeerden de auteurs van een spraakmakende serie artikelen in *The Lancet*, getiteld ‘Increasing value, reducing waste.’<sup>1</sup> Hun conclusie over de beperkte relevantie van medisch wetenschappelijk onderzoek vindt brede steun, ook in Nederland.<sup>2-5</sup> De Nederlandse medische onderzoeksweld wil daar graag iets aan doen. Dat ‘begint met het agenderen van voor de praktijk relevante onderwerpen, door samen te werken met beoogde gebruikers van kennis, en het stellen van vragen die er toe doen’, aldus de Gezondheidsraad.<sup>3</sup>

Maar hoe stel je zo'n onderzoeksagenda op en vooral: wat is de rol van patiënten daarin? Daarover lopen de discussies hoog op, zoals eerder werd beschreven in een ‘Opera’ in 3 delen in dit tijdschrift.<sup>6</sup> Vragen die daarbij opkomen zijn: kunnen patiënten wel meedenken over prioritering van wetenschappelijk onderzoek?<sup>7</sup> En als ze al mogen meedenken, hebben ze dan ook echt invloed op de conclusies, of worden die uiteindelijk toch weer geschreven door onderzoekers, met hun eigen prioriteiten?<sup>8</sup>

### PATIËNTPARTICIPATIE BIJ ONDERZOEKSPRIORITERING

Midden in deze discussie reikte de Federatie van Medisch Wetenschappelijke Verenigingen (FMWV) in november 2016 de maatschappelijke Federa-prijs uit aan de James Lind Alliance (JLA).<sup>9</sup> De JLA, onderdeel van het Britse National Institute for Health Research, is een organisatie die in 2004 werd opgericht door Sir Iain Chalmers, een van de auteurs en initiatiefnemers van de eerdergenoemde Lancet-serie. Het doel van de JLA is om gebruikers van wetenschappelijke kennis – patiënten, familieleden en behandelaars – samen een onderzoeksagenda op te laten stellen voor een ziekte of een vorm van zorg. In een zogenoemde ‘priority setting partnership’ (PSP) komen ze stapsgewijs tot een top-10 van de belangrijkste onbeantwoorde onderzoeksvragen over de ziekte.<sup>10</sup> Tot nu toe zijn er ruim 50 top-10'en gemaakt (tabel 1), waarvan één in Nederland.<sup>11</sup> Voor de inhoud en achtergrond

Rijksinstituut voor Volksgezondheid en Milieu, Centrum Kennisintegratie Volksgezondheid en Zorg, Bilthoven.

Dr. C.G. Schoemaker, psycholoog (tevens: Wilhelmina Kinderziekenhuis, Utrecht).

UMC Utrecht, Onderwijscentrum, Utrecht.

Prof.dr. A.B.J. Prakken, kinderarts.

GGZ Rivierduinen Eetstoornissen Ursula, Leiden.

Prof.dr. E.F. van Furth, klinisch psycholoog (tevens: afd. Psychiatrie, LUMC).

Contactpersoon: dr. C. Schoemaker (casper.schoemaker@rivm.nl).

**TABEL 1** Aandoeningen en behandelvormen waarvoor een onderzoeksagenda is opgesteld met de methode van de James Lind Alliance<sup>12</sup>**aandoening of procedure (jaartal)**

acne (2014)	diabetes mellitus type 1 (2011)	multiple sclerose (2013)
alcohol-gerelateerde leverziekte (2016)	doodgeboorte (2015)	neuro-oncologie (2015)
anesthesie en perioperatieve zorg (2015)	dwarslaesie (2014)	nierkanker (Canada) (2015)
anticonceptie (2017)	eczeem (2012)	niertransplantatie (2016)
astma (2007)	eetstoornissen (Nederland) (2016)	oor, neus en keel (aspecten van evenwicht) (2011)
autisme (2016)	endometriose (2017)	palliatieve en einde-van-het-leven-zorg (2015)
baarmoederkanker (2016)	fibromyalgie (Canada) (2016)	patiëntveiligheid in de eerste lijn (2017)
beroerte (Schotland) (2011)	gespleten lip en gehemelte (2012)	prostaatkanker (2010)
bipolaire stoornis (2016)	gezichtsvermogen en visus (2013)	schizofrenie (2011)
cavernoom (2015)	haaruitval (2015)	spoedeisende geneeskunde (2017)
chirurgie voor veelvoorkomende problemen van de schouder (2015)	heup- en knievervanging voor artrose (2014)	tinnitus (2012)
cellulitis (2017)	hidradenitis suppurativa (2013)	urine-incontinentie (2008)
cystische fibrose (2017)	hypertensie (Canada) (2016)	vitaligo (2010)
decubitus (2013)	inflammatoire darmziekten (2015)	vroege heup- en knie-artrose (2016)
dementie (2013)	intensive care (2014)	vroeggeboorte (2014)
dementie (Canada) (2017)	jeugdhandicap (2014)	ziekte van Lyme (2012)
depressie (2016)	mesotheloom (2014)	ziekte van Parkinson (2014)
	mild tot matig gehoorverlies (2015)	

van deze top-10'en, zie de website van de JLA ([www.jla.nihr.ac.uk/top-10-priorities](http://www.jla.nihr.ac.uk/top-10-priorities)).<sup>12</sup>

Ondanks de uitreiking van de Federa-prijs aan de JLA is de JLA-methode in Nederland nog vrij onbekend. In dit artikel geven we een beschrijving van de methode, mede op grond van eigen ervaringen.<sup>11</sup> Daarbij gaan we ook nader in op de wijze waarop de JLA-methode antwoorden geeft op de vragen over de rol van patiënten bij het prioriteren van medisch wetenschappelijk onderzoek.<sup>6-8</sup> We vergelijken de JLA-methode met twee andere vormen van onderzoeksagendering die in Nederland al wat gangbaarder zijn: het dialoogmodel dat is ontwikkeld door de Vrije Universiteit, en de 'agenda zorgevaluatie' van de Federatie van Medisch Specialisten (FMS).<sup>13,14</sup>

**DE JLA-METHODE**

Het opstellen van een onderzoeksagenda met de JLA-methode duurt ongeveer één tot anderhalf jaar. In het via internet gratis beschikbare JLA-handboek staat de methode uitgebreid beschreven.<sup>10</sup> De JLA heeft adviseurs in dienst die meedenken en meehelpen bij elke PSP. Meestal leiden zij ook de discussiebijeenkomsten. Initiatiefnemers kunnen gezondheidsfondsen zijn, maar ook patiëntenverenigingen of specialistenverenigingen; meestal is het een gezamenlijk initiatief. PSP's werden tot nu toe vooral gefinancierd door gezondheidsfondsen. De JLA-methode bestaat uit de volgende 6 stappen:

**(a) Stuurgroep samenstellen** Een PSP begint met het

samenstellen van een stuurgroep van ongeveer 12 mensen. Deze stuurgroep is verantwoordelijk voor het hele proces, van start tot finish. In de stuurgroep zitten vertegenwoordigers van zorgverleners (ook paramedici en verpleegkundigen), patiënten en familieleden van patiënten. De stuurgroep wordt bijgestaan door een informatiespecialist, die meestal werkzaam is bij een kennisinstituut of zorginstelling.

**(b) Enquête uitzetten** Via internet en sociale media wordt vervolgens een enquête uitgezet. Niet alleen onder de leden van de betrokken beroepsverenigingen, maar ook bij de leden van patiënten- en ouderorganisaties. En ook onder betrokkenen die niet zijn georganiseerd. Er wordt expliciet verzocht om vragen door te geven die in de spreekkamer worden gesteld en die nog niet met onderzoek beantwoord kunnen worden. Aan de formulering van de ingediende vragen worden geen eisen gesteld.

**(c) Onderzoeksvragen groeperen** De enquête levert meestal honderden of duizenden deels overlappende reacties op. De stuurgroep groepeerde de vragen vervolgens per thema. De informatiespecialist controleert onder meer in PubMed of vragen al zijn beantwoord in relevante overzichtsartikelen over effectonderzoek van hoge kwaliteit. Deze vragen komen uiteraard niet in de agenda terecht.

**(d) Onderzoeksvragen combineren** Overlappende onderzoeksvragen worden door de stuurgroep samengenomen, waarna er enkele tientallen unieke onderzoeksvragen overblijven.

**TABEL 2** Vergelijking van methoden voor onderzoeksgendering waarin gebruikers van onderzoeksresultaten participeren

kenmerk	methode (organisatie)		
	dialogoemodel (VU)	'priority setting partnership' (JLA)	agenda zorgevaluatie (FMS)
<b>algemeen</b>			
theoretische achtergrond	antropologie, sociologie	klinische epidemiologie (GB)	klinische epidemiologie (NL)
initiatiefnemer	patiëntenvereniging	fonds, patiëntenvereniging en/of specialistenvereniging	wetenschappelijke specialistenvereniging
afbakening onderwerp	ziekte	ziekte of behandelvorm	specialisme
patiënten in de werkgroep	ja	ja	nee
financier	fondsen en ZonMw	fondsen en NHS	SKMS, ZonMw, ZN
aantal afgeronde agenda's (waarvan in NL)	15 (15)	52 (1)	6 (6)
<b>inventarisatie vragen</b>			
methode ophalen onderzoeksvragen	focusgroepen	enquête	enquête
afbakening inhoud van de vragen	geen; nadruk op leven met de ziekte	geen; nadruk op behandeling	behandeling
eisen aan formulering van de vragen	geen	geen	PICO-format
check of vragen al zijn onderzocht	nee	ja	ja
<b>samenvoegen en prioriteren</b>			
verzamelen vragen per doelgroep	2 lijsten: vragen van patiënten en verzorgers vragen van behandelaren	3 lijsten: vragen van patiënten vragen van verzorgers vragen van behandelaren	1 lijst
rekening houden met bestaande onderzoekslijnen	nee	nee	ja
getalsmatig gelijkwaardige aanwezigheid patiënten bij prioriterings-bijeenkomst	ja	ja	nee

JLA = James Lind Alliance; FMS = Federatie van Medisch Specialisten; GB = Groot-Brittannië; NL = Nederland; NHS = National Health Service; SKMS = Stichting Kwaliteitsgelden Medisch Specialisten; ZN = Zorgverzekeraars Nederland; PICO staat voor: Patiënt, probleem of populatie, Interventie, Controle ('comparison') en uitkomst ('Outcome').

**(e) Tussentijdse prioritering** De gecombineerde vragen worden – bijvoorbeeld via een webportaal – uitgezet voor een tussentijdse prioritering.<sup>11</sup> Respondenten rangschikken deze vragen tot een persoonlijke top-10. De reacties worden afzonderlijk weergegeven in aparte top-10'en voor zorgverleners, patiënten en familieleden. Uiteindelijk blijven er dus maximaal 30 vragen over.

**(f) Opstellen top-10** Tijdens een slotbijeenkomst brengen zorgverleners, patiënten en familieleden de overgebleven 30 vragen in enkele discussieronden terug tot een gezamenlijke top-10. Deze top-10 wordt vervolgens gepubliceerd in een wetenschappelijk tijdschrift en op de website van de JLA. Bij deze publicatie worden meestal ook patiënten betrokken.

#### NIEUWE ONDERZOEKSVRAGEN

Door de vragen van een groot aantal top-10'en te vergelijken met de onderzoeksvragen in geregistreerde trials toonden Chalmers en collega's aan dat de JLA-methode inderdaad leidt tot nieuwe onderzoeksvragen die normaal gesproken niet worden geadresseerd in onderzoek.<sup>15</sup> Opvallend is verder dat onderzoeksagenda's die mede zijn opgesteld door patiënten niet alleen leiden tot klinische onderzoeksvragen. In de onderzoeksagenda's die met de JLA-methode zijn opgesteld worden ook fundamentele en translationele onderzoekers aangesproken.

De eerste PSP's hebben geleid tot onderzoeksprojecten die inmiddels zijn afgerond.<sup>12</sup> Enkele top-10'en zijn door het financierende fonds overgenomen in een onderzoeks-

call, onder andere door Marie Curie (een Brits fonds voor onderzoek naar terminale en palliatieve zorg).

#### NEDERLANDSE METHODEN VOOR ONDERZOEKSAGENDERING

De JLA-methode werd ontwikkeld in Groot-Brittannië en is tot nu toe één keer in Nederland toegepast, voor eetstoornissen.<sup>11</sup> In Nederland kennen we al wel twee andere vormen van onderzoeksagendering: het dialoogmodel en de inventarisatie van kennishiaten in het kader van een FMS-agenda zorgevaluatie. Globaal hebben deze methoden dezelfde opbouw als de JLA-methode. Het begint met een brede inventarisatie van mogelijke onderzoeksvragen. Deze worden ingedikt en geprioriteerd en uiteindelijk gepubliceerd in de vorm van een korte lijst met relevante onderzoeksvragen. De invulling van de stappen – en vooral de rol van patiënten in dit proces – verschilt sterk per methode (tabel 2).

**Dialoogmodel** Het dialoogmodel werd aan de VU ontwikkeld door Broerse en Abma.<sup>13</sup> Met deze methode zijn inmiddels zo'n 15 onderzoeksagenda's gemaakt, alle in Nederland.<sup>16</sup> In grote lijnen zijn de stappen in het dialoogmodel vergelijkbaar met die van de andere methoden. Een opvallend verschil is dat het dialoogmodel is ontwikkeld vanuit een kwalitatieve andragologische insteek, terwijl beide andere methoden zijn geworteld in de klinische epidemiologie.<sup>16,17</sup> Het doel is een dialoog op gang te brengen tussen patiënten en onderzoekers. Om te voorkomen dat het patiëntengeluid hierin onvoldoende wordt gehoord, start men met aparte focusgroepen voor patiënten en onderzoekers. In de patiënten-focusgroepen worden ervaringen gedeeld en gaan de deelnemers samen op zoek naar de belangrijkste vragen. De verslagen van de focusgroepen vormen het startpunt voor de dialoog tussen patiënten en onderzoekers.<sup>13</sup>

**FMS-methode** Het startpunt voor de FMS-methode is het medische specialisme, en niet een ziekte of patiëntengroep.<sup>14</sup> De werkgroep is monodisciplinair: patiënten maken geen deel uit van de werkgroep. Bij het ophalen van vragen wordt deelnemers gevraagd om het PICO-format aan te houden (PICO staat voor: Patiënt, probleem of populatie, Interventie, Controle ('comparison') en uitkomst ('Outcome')). Daarmee is deze methode sterk gericht op RCT's. Bij de uiteindelijke prioriteringsbijeenkomsten zijn wel patiëntvertegenwoordigers aanwezig, maar deze zijn sterk in de minderheid.<sup>18</sup> In tegenstelling tot beide andere methoden houdt de FMS bij de keuze van de prioriteiten expliciet rekening met de bestaande onderzoekslijnen in de Nederlandse onderzoekscentra.<sup>14</sup>

#### EEN VERGELIJKING VAN DE METHODEN

Onderzoekagenda's die zijn opgesteld door kennisgebruikers kunnen helpen om het medische onderzoek in

Nederland relevanter te maken. Het opstellen van een onderzoeksagenda leidt tot nieuwe onderzoeksvragen. Het grootste voordeel is dat zo'n proces leidt tot een dialoog tussen makers en gebruikers van kennis, over wat de relevante onderzoeksvragen zijn voor een bepaalde ziekte of behandelvorm.<sup>16,19</sup>

De twee bestaande Nederlandse methoden verschillen enorm, zoals wel blijkt uit tabel 2. De JLA-methode neemt als het ware een tussenpositie in. De toevoegde waarde van de JLA-methode is dat er internationaal al veel ervaring mee is opgedaan; bovendien is met de PSP voor eetstoornissen aangetoond dat deze methode ook in Nederland goed uitvoerbaar is.<sup>13</sup> De JLA-methode heeft al geleid tot tientallen nieuwe onderzoeksprojecten.<sup>12</sup> Zodra er in Nederland wat meer PSP's zijn uitgevoerd, zou het goed zijn het proces en de uitkomsten van de drie methoden een keer direct te vergelijken, voor eenzelfde patiëntengroep.

De JLA-methode is net als de FMS-methode geworteld in de klinische epidemiologie, maar dan de iets minder strikte Britse variant.<sup>20</sup> Zo hoeven de respondenten hun vragen niet te formuleren volgens het PICO-format. De stuurgroep van een PSP bestaat niet alleen uit medisch specialisten, maar uit zorgverleners, patiënten én hun naasten. De inbreng van patiënten en naasten in de tussentijdse prioritering wordt apart gehouden, vergelijkbaar met het dialoogmodel. In de prioritering volgens de JLA-methode wordt met opzet geen rekening gehouden met de bestaande onderzoekslijnen.<sup>11,12</sup>

Patiënten en naasten zouden altijd betrokken moeten worden bij het opstellen van een onderzoeksagenda. Hun rol is kwetsbaar: écht meebeslissen gaat niet vanzelf.<sup>9</sup> In de JLA-methode zijn daarom – net als in het dialoogmodel – voorzorgsmaatregelen ingebouwd. Welke van beide beproefde methoden het beste helpt om de stem van de patiënt te laten doorklinken in de uiteindelijke agenda, zou nader onderzocht moeten worden.<sup>16,17</sup>

#### TOT SLOT

Het opstellen van een onderzoeksagenda is geen doel op zich.<sup>15,19</sup> Onderzoekers zouden erdoor geïnspireerd moeten worden bij het opzetten van nieuw onderzoek. De opstellers zouden daarom in gesprek moeten gaan met onderzoekers, gezondheidsfondsen en andere subsidiegevers. De onderzoeksprioriteiten kunnen vervolgens worden opgenomen in de tekst van oproepen voor specifieke subsidierondes. Zo stijgt de relevantie van medisch onderzoek. En dat is uiteindelijk niet alleen goed voor de patiënt en dokter in de spreekkamer, maar ook voor de onderzoekers zelf. Ze doen dan onderzoek dat er echt toe doet.

## LITERATUUR

- 1 Macleod MR, Michie S, Roberts I, et al. Biomedical research: increasing value, reducing waste. *Lancet*. 2014;383:101-4.
- 2 Maassen H. Medische wetenschap is 'vooral carrièrespel'. Science in transition luidt de noodklok over de onderzoekspraktijk. *Med Contact* (Bussum). 2014;69:1094-7.
- 3 Onderzoek waarvan je beter wordt. Een heroriëntatie op umc-onderzoek. *Publicatienr.* 2016/14. Den Haag: Gezondheidsraad; 2016.
- 4 Zonder context geen bewijs. Over de illusie van evidence-based practice in de zorg. *Publicatie 17-05*. Den Haag: Raad voor Volksgezondheid en Samenleving; 2017.
- 5 Hoogendoorn PCW, Levi MM (red). *Onderzoeksagenda naar Sustainable Health. Nationaal plan academische geneeskunde, biomedische wetenschap en gezondheidsonderzoek*. Utrecht: NFU; 2016.
- 6 Zaat J. Trekken en duwen. De umc's in het krachtenveld van onderzoek en zorg, een 'opera' in 3 akten. *Ned Tijdschr Geneeskd*. 2016;160:C3235.
- 7 Van Tuyl LHD, Scholte-Voshaar MMJH. Patiëntenparticipatie in wetenschappelijk onderzoek. *Ned Tijdschr Geneeskd*. 2011;155:A3501.
- 8 Van der Horst HE, Berger MY. Uitwerking van wetenschapsagenda NFU roept vragen op. *Ned Tijdschr Geneeskd*. 2016;160:D583.
- 9 Chalmers I. The James Lind Initiative. *J R Soc Med*. 2003;96:575-6.
- 10 JLA Guidebook. [www.jla.nihr.ac.uk/jla-guidebook](http://www.jla.nihr.ac.uk/jla-guidebook), geraadpleegd op 16 augustus 2017.
- 11 Van Furth EE, van der Meer A, Cowan K. Top 10 research priorities for eating disorders. *Lancet Psychiatry*. 2016;3:706-7.
- 12 James Lind Alliance. Top 10s of priorities for research. [www.jla.nihr.ac.uk/top-10-priorities](http://www.jla.nihr.ac.uk/top-10-priorities), geraadpleegd op 16 augustus 2017.
- 13 Abma TA, Broerse JE. Patient participation as dialogue: setting research agendas. *Health Expect*. 2010;13:160-73.
- 14 Van project naar proces. *Adviesrapport Zorgevaluatie*. Utrecht: Federatie van Medisch Specialisten; 2016.
- 15 Crowe S, Fenton M, Hall M, Cowan K, Chalmers I. Patients, clinicians and the research communities priorities for treatment research: there is an important mismatch. *BMC Res Involv Eng*. 2015;1:2.
- 16 Raeymaekers P. Mind the gap! Multi-stakeholder dialogue for priority setting in health research. Brussel: King Baudouin Foundation; 2016.
- 17 Nieuwenhuis D. Set the research agenda. The embedment of demand-driven research agendas in the Dutch health research field [scriptie in opdracht van ZonMw]. Amsterdam: Vrije Universiteit; 2006.
- 18 Agenda Zorgevaluatie Orthopedie. 's-Hertogenbosch: Nederlandse Orthopaedische Vereniging; 2015.
- 19 Abma TA, Pittens CA, Visse M, Elberse JE, Broerse JE. Patient involvement in research programming and implementation: a responsive evaluation of the Dialogue Model for research agenda setting. *Health Expect*. 2015;18:2449-64.
- 20 Schoemaker CG, van der Weijden T. Patiëntvoorkeur versus evidencebased medicine. *Ned Tijdschr Geneeskd*. 2016;160:D24.