

Slaapapneu vaststellen bij volwassenen met downsyndroom met de WatchPAT

Een haalbaarheidsonderzoek

Door: Manna A. Alma^{1,2}, Rixt Nijenhuis-Huls¹, Zarah de Jong¹, Aurora M. Ulgiati¹, Anja de Vries¹, Alain D. Dekker^{1,3}

1. Afdeling Praktijkgericht Wetenschappelijk Onderzoek (PWO), Alliade, Heerenveen, Nederland
2. Afdeling Toegepast GezondheidsOnderzoek, Rijksuniversiteit Groningen, Universitair Medisch Centrum Groningen, Nederland
3. Afdeling Neurologie en Alzheimer Centrum, Rijksuniversiteit Groningen, Universitair Medisch Centrum Groningen, Nederland

Dit artikel is een aangepaste Nederlandse vertaling van het artikel 'Detecting sleep apnea in adults with Down syndrome using WatchPAT: A feasibility study' door Alma e.a. dat eerder dit jaar verscheen in het tijdschrift *Research in Developmental Disabilities* (Uitgeverij Elsevier).

1. Inleiding

Slaapapneu is een ernstige slaapstoornis waarbij gedurende de slaap de ademhaling veelvuldig wordt onderbroken door afsluiting van de luchtwegen (obstructief) of doordat de hersenen de ademhaling niet goed reguleren (centraal).¹ Slaapapneu komt voor in alle leeftijdscategorieën² en wordt in verband gebracht met verhoogde morbiditeit, waaronder slaperigheid overdag, hypertensie, hart- en vaatziekten, diabetes type 2^{1,3}, verminderde kwaliteit van leven⁴⁻⁶ en verhoogde mortaliteit^{7,8}.

Slaapproblemen komen bij mensen met downsyndroom veel voor.⁹ Uit een polysomnografiestudie bleek dat 78% van de deelnemers slaapapneu had, terwijl cliënten zelf en zorgverleners hiervan geen melding hadden gemaakt.¹⁰ In de algemene bevolking (zonder verstandelijke beperkingen, VB) ligt de prevalentie tussen 2 en 26%.^{11,12} De significant hogere prevalentie bij mensen met downsyndroom is toe te schrijven aan verschillende anatomische en fysiologische kenmerken.^{9,10} Bovendien is slaapapneu bij hen vaak ernstiger dan in de algemene populatie.¹³

Polysomnografie, de gouden standaard voor het detecteren van slaapapneu, is tijdrovend, duur en belastend.¹⁴ Hierdoor is het vaststellen van slaapapneu bij mensen met downsyndroom lastig. In de dagelijkse praktijk is het vaststellen bij hen vaak gebaseerd op klinische (hetero)anamnese door een arts, ondersteund met vragenlijsten zoals de Berlin, Epworth en STOP-Bang.^{15,16} Deze vragenlijsten geven echter niet de slaapverstoringen weer zoals een polysomnografie dat wel doet.^{10,15}

Als gevolg hiervan is er sprake van onderdiagnostiek en worden mensen met downsyndroom en slaapapneu vaak niet (adequaat) behandeld.

Het is belangrijk slaapapneu in een vroeg stadium vast te stellen en te behandelen omdat mensen met downsyndroom vatbaarder zijn voor cardiovasculaire en neurocognitieve gevolgen van deze slaapstoornis, zoals problemen met het korte- en langetermijngeheugen en met taal.¹⁷ Daarnaast kan niet-gediagnosticeerde slaapapneu symptomen veroorzaken die foutief kunnen worden toegeschreven aan andere aandoeningen, zoals dementie.¹⁸ Bovendien kan verstoorde slaap leiden tot gedragsproblemen.^{19,20} Hierdoor ontvangen mensen met downsyndroom en slaapapneu mogelijk niet de juiste begeleiding en behandeling, wat ten koste kan gaan van hun kwaliteit van leven. Het behandelen van slaapproblemen kan de cognitie en kwaliteit van leven van mensen met downsyndroom verbeteren en bevorderen dat ze gezonder oud worden.¹⁰

Gezien de relevantie van het vaststellen van slaapapneu is het belangrijk deze stoornis bij mensen met downsyndroom op een minder ingrijpende en belastende manier te detecteren.²¹ Draagbare hulpmiddelen voor thuisgebruik, zoals de WatchPAT, kunnen uitkomst bieden.²²

De WatchPAT bestaat uit een polshorloge, vingerprobe en borst-sensor die thuis tijdens de slaap worden gedragen. Het systeem detecteert apneus indirect door de sympathische arousal te meten, veroorzaakt door obstructie van de bovenste luchtwegen of centraal event. De in de vingerprobe geïntegreerde

pulsoximeter registreert de perifere arteriële tonometrie (PAT), hartslag en zuurstofwaarde in het bloed; de in het horloge geïntegreerde actigraaf de lichaamsbewegingen en de sensor die in het midden van het minubrium wordt gedragen het snurken, de lichaamshouding en bewegingen van de borstkas. Apneus worden door een combinatie van het PAT-signaal, zuurstofdesaturatie en verhoging van de hartslag geïdentificeerd. Daarnaast maakt de WatchPAT op basis van actigrafie, het PAT-signaal en hartritme onderscheid tussen waken en slapen en tussen NREM- en REM-slaap. Het algoritme van de bij de WatchPAT behorende software genereert op basis van de metingen een slaaprapportage, die moet worden geïnterpreteerd en zo nodig volgens de manuele scoringsrichtlijnen handmatig moet worden aangepast.²²

De WatchPAT is in de algemene populatie onderzocht in diverse patiëntgroepen, onder zowel mannen als vrouwen van verschillende leeftijden, onder wie ook chronisch zieken.^{14,23–27} De toepasbaarheid en validiteit zijn bestudeerd en vergeleken met polysomnografie, met veelbelovende resultaten, zo bleek uit een meta-analyse.¹⁴ Gezien de hoge prevalentie en huidige onderdiagnostiek van slaapapneu bij mensen met downsyndroom wekt het verbazing dat de WatchPAT tot op heden niet bij deze doelgroep is onderzocht.

In deze studie is onderzocht of het vaststellen van slaapapneu met de WatchPAT bij mensen met downsyndroom haalbaar is.

2. Methodes

2.1. Studieopzet

De haalbaarheid werd onderzocht met een combinatie van kwantitatieve en kwalitatieve onderzoeksmethodes. We vergeleken de uitkomsten van de WatchPAT met die van de STOP-Bang-vragenlijst. Daarnaast onderzochten we bevorderende en belemmerende factoren die mensen met downsyndroom, zorgverleners en medici bij het gebruik en de acceptatie van de WatchPAT ervoeren middels vragenlijsten met Likert-schalen en semigestructureerde interviews. Hierbij hanteerden we de Consolidated Criteria for Reporting Qualitative Research (COREQ).²⁸

2.2. Deelnemers: cliënten, zorgverleners en medici

Cliënten die de WatchPAT gingen dragen, moesten fenotypisch downsyndroom hebben en 18 jaar of ouder zijn. Een permanente pacemaker gold als exclusiecriteria omdat deze de WatchPAT-metingen kan beïnvloeden.²² Deelnemers werden geworven via Alliade, een grote Friese zorginstelling die representatief is voor veel Nederlandse gehandicaptenzorgorganisaties. Door doelgerichte selectie verzekerden we ons van variatie in mate van VB, leeftijd en geslacht. In totaal werden 51 cliënten uitgenodigd voor deelname, van wie 31 (61%)

geïnformeerd toestemming gaven. Redenen om niet mee te doen, waren bijvoorbeeld dat wettelijk vertegenwoordigers het vaststellen van slaapapneu niet nodig vonden omdat de cliënt volgens hen goed sliep; dat ze verwachtten dat de cliënt niet zou willen meewerken of dat de cliënt snel overprikkeld is.

Zorgverleners die aanwezig waren op de avond voordat of de ochtend nadat de deelnemer met de WatchPAT had geslapen (n=29), vulden een vragenlijst in over hun ervaringen. Na doelgerichte selectie namen tien van hen deel aan een kwalitatief interview.

Daarnaast werden vier medici (drie artsen VG en één verpleegkundig specialist (VS)) geïnterviewd die betrokken waren bij het interpreteren van de WatchPAT-rapportages en de onderliggende metingen.

2.3. Ethiek en toestemming

De Medisch-Ethische Toetsingscommissie van het UMCG oordeelde dat dit onderzoek (nr. 2020/354) niet onder de reikwijdte viel van de Wet medisch-wetenschappelijk onderzoek met mensen. Het onderzoek is opgenomen in het UMCG Research Register (nr. 202000484) en voldeed aan de Algemene verordening gegevensbescherming en de Verklaring van Helsinki. De wettelijke vertegenwoordigers van mogelijke deelnemers met downsyndroom werden mondeling geïnformeerd door een gedragskundige en ontvingen een informatiefolder. Zij gaven schriftelijk toestemming voor deelname (proxy consent). Wanneer cliënten zich duidelijk tegen het dragen van de WatchPAT verzetten, bijvoorbeeld door het apparaatje te verwijderen, werd deelname aan het onderzoek beëindigd.

2.4. Dataverzameling

2.4.1. Kenmerken van de deelnemers

De volgende sociaal-demografische en klinische kenmerken haalden we uit cliëntdossiers: leeftijd, geslacht, woonsituatie en wel/geen dementie. De data verzamelden en beheerden we met Research Electronic Data Capture (REDCap)^{29,30}, gehost bij Alliade.

2.4.2. Niveaubepaling

Omdat we veronderstelden dat de mate van VB van invloed zou kunnen zijn op de acceptatie van de WatchPAT, namen we een intelligentietest af. Op basis van het cliëntdossier, klinische oordeel van artsen en gedragskundigen, en de verwachte mate van VB kozen we de WPPSI-III-NL³¹, SON-R 2-8³² of Bayley-III-NL³³. Er werd geen niveaubepaling gedaan als dit in de vijf jaar voorafgaand aan dit onderzoek al was gebeurd, als wettelijk vertegenwoordigers hiervoor geen toestemming gaven, als cliënten niet aan de test wilden meewerken of als cliënten (vermoede-

lijk) dementie hadden. Bij deze deelnemers werd de mate van VB gebaseerd op het klinische oordeel en het cliëntdossier.

2.4.3. Huidige praktijk: STOP-Bang

Momenteel wordt voor het screenen van slaapapneu vaak de STOP-Bang-vragenlijst gebruikt.^{34,35} Het scoremodel hiervan bestaat uit acht ja/nee-vragen (score 1/0). Een arts VG die geen behandelrelatie met de betreffende cliënt had en niet betrokken was bij de interpretatie van diens WatchPAT-metingen, vulde de STOP-Bang-vragenlijst (vanwege coronamaatregelen) via Microsoft Teams in met de zorgverlener van de cliënt (ouder of begeleider). De klinische gegevens die verder nodig waren voor het voltooiën van de STOP-Bang, zoals lengte, gewicht, bloeddruk en omtrek van de nek, werden bij aflevering van de WatchPAT gemeten. Op basis van de STOP-Bang-vragenlijst stelde de arts vast of de cliënt een laag, intermediair of hoog risico op slaapapneu had.

2.4.4. WatchPAT-metingen

Cliënten en zorgverleners kregen mondeling en schriftelijk uitleg over het gebruik van de WatchPAT. Cliënten hadden de gelegenheid om vooraf maximaal twee nachten met een dummy te slapen om aan de WatchPAT te wennen. Wanneer cliënten de WatchPAT duidelijk weigerden te dragen, werd deelname aan het onderzoek beëindigd.

Om genoeg betrouwbare data te verkrijgen, moesten cliënten de WatchPAT tijdens de slaap minstens 4 uur dragen. De WatchPAT-data werden anoniem geüpload in de zzzPAT-software (Itamar Medical), een online (cloud) managementsysteem voor slaaponderzoeken, gehost op Europese servers. Deze data werden voor interpretatie doorgestuurd naar de medici. Alle data werden gescoord op basis van de 3%-richtlijn. D.w.z. de medici moesten de achterliggende metingen beoordelen als in de rapportage sprake was van een van de volgende situaties: verschil tussen ODI (Oxygen Desaturation Index) en pAHI (PAT Apneu-Hypopneu Index) >10 punten én zowel SpO2 als pAHI <30 punten, of bij een vermoeden van aritmie of veel centrale slaapapneus. Eén arts en VS interpreteerden alle WatchPAT-metingen. Twee andere artsen die ook betrokken waren bij het interpreteren van de STOP-Bang-data interpreteerden alleen de WatchPAT-data van deelnemers wier STOP-Bang-data zij niet hadden geïnterpreteerd. Uiteindelijk werden alle WatchPAT-metingen geïnterpreteerd door twee artsen en één VS. De volgende data uit het eindrapport van de medici werden gebruikt: de mate van slaapapneu (geen, licht, matig, ernstig) en het type slaapapneu. Alle medici volgden WatchPAT-trainingen en interpreteerden de data volgens de WatchPAT-handleiding.²²

2.4.5. Ervaringen van cliënten, zorgverleners en medici

Cliënten: Op basis van de Intrinsic Motivation Inventory^{36,37} werd een vragenlijst met zeven items ontwikkeld. De items werden

gescoord op een vijfpunts-Likert-schaal met smileys, van negatief tot positief.

Zorgverleners: Om de ervaringen van zorgverleners bij het werken met de WatchPAT vast te stellen, werd het Meetinstrument voor Determinanten van Innovaties (MIDI)^{38,39} gebruikt. Hierbij kwamen de volgende onderwerpen aan bod: procedurele helderheid, compleetheid, complexiteit, relevantie voor de cliënt, voordelen, nadelen, uitkomstverwachtingen, taakopvatting, medewerking van de cliënt, sociale steun, kennis, eigen effectiviteitsverwachting en beschikbare tijd. De items werden gescoord op een vijfpunts-Likert-schaal, van negatief tot positief. Daarna werden ze teruggebracht tot een driepuntsschaal (eens, neutraal, oneens) voor een bondigere weergave in de resultatensectie.

Bij tien zorgverleners werd een semigestructureerd interview afgenomen met open vragen over de eerdergenoemde onderwerpen om diepgaand inzicht te krijgen in hun ervaringen met de WatchPAT en bevorderende en belemmerende factoren bij het gebruik. De interviews (duur 20-33 minuten) werden afgenomen door twee onderzoekers (MAA en ZdJ). De onderzoekers en zorgverleners kenden elkaar voorafgaand aan het onderzoek niet. De interviews vonden plaats tussen maart en juni 2021, via Teams (n=9) en telefonisch (n=1). De dataverzameling werd gestopt toen inhoudelijke verzadiging was bereikt, d.w.z. zodra in verdere interviews geen nieuwe informatie werd gegeven.

Medici: De medici (n=4) werden geïnterviewd over hun ervaringen bij het interpreteren van de WatchPAT-data. Eén onderzoeker (MAA) nam de interviews over de eerdergenoemde onderwerpen af. De interviews (duur 16-34 minuten) vonden plaats in juni 2021 via Teams.

2.5. Data-analyse

2.5.1. Kwantitatieve analyses

Om de kenmerken van de deelnemers, de conclusie van de WatchPAT-metingen (geen, lichte, matige, ernstige slaapapneu) en de data die uit de vragenlijst voortkwamen te beschrijven, maakten we gebruik van beschrijvende statistiek. Middels onafhankelijke t-toetsen en Fishers exacte toetsen werden de cliënten die de WatchPAT accepteerden, vergeleken met de cliënten die dit niet deden. De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid voor de mate van slaapapneu (geen, licht, matig, ernstig) werd bepaald door de overeenkomstpercentages en de kappa-waardes te berekenen. $k < 0$ betekent geen overeenkomst, 0-0.20 lichte, 0.21-0.40 geringe, 0.41-0.60 matige, 0.61-0.80 goede en > 0.81 nagenoeg perfecte overeenkomst.⁴⁰ De kwantitatieve analyses werden uitgevoerd met de statische software SPSS (versie 26.0).

2.5.2. Kwalitatieve analyses

De interviews werden woordelijk getranscribeerd en geanalyseerd aan de hand van de vijf stappen van thematische analyse.⁴¹ Dit was een iteratief proces van lezen, categoriseren, herlezen en verfijnen. In stap 1 lazen twee onderzoekers (MAA en ZdJ) onafhankelijk van elkaar de volledige transcripten. In stap 2 werden de transcripten open gecodeerd. In stap 3 werden de data geïnterpreteerd, gecategoriseerd en in thema's verdeeld. In stap 4 bediscussieerden en verfijnden de onderzoekers (MAA en ZdJ) de thema's totdat overeenstemming was bereikt. In de laatste stap werden de definiëring en benaming van de thema's afgestemd op de onderzoeksvraag. Om de ervaringen van zorgverleners en medici te verduidelijken, zijn in de resultatensectie citaten uit de interviews opgenomen.⁴² De kwalitatieve analyse werd uitgevoerd met ATLAS.ti (versie 9.0).

3. Resultaten

3.1. Kenmerken van de deelnemers

In totaal werden 31 deelnemende cliënten geïncludeerd. In Tabel 1 zijn hun kenmerken weergegeven.

Tabel 1.

Kenmerken cliënten

Kenmerken	Cliënten totaal N=31 (100%)	Geaccepteerd N=21 (68%)	Niet geaccepteerd N=10 (32%)	P-waarde
leeftijd (jr)				0,01
Gemiddeld ± SD	46.6 ± 12.2	43.3 ± 13.0	53.7 ± 6.1	
Bereik	24-62	24-61	43-62	
Geslacht (man)	18 (58%)	12 (57%)	6 (60%)	0,99
Mate VB*				
Licht	1 (3%)			
Licht/matig	5 (16%)			
Matig	10 (32%)			
Matig/ernstig	1 (3%)			
Ernstig/zeer ernstig	14 (45%)			
Mate VB**				0,01
Licht/matig	17 (55%)	15 (71%)	2 (20%)	
Ernstig/zeer ernstig	14 (45%)	6 (29%)	8 (80%)	
Woonsituatie				
Thuis	2 (7%)			
Zorginstelling	28 (93%)			
(vermoeden van) dementie				0,58
Ja	4 (13%)	2 (10%)	2 (20%)	
Nee	27 (87%)	19 (90%)	8 (80%)	

* Bij 27 deelnemers werd een intelligentietest afgenomen (WPPSI-III-NL (n=22); SON-R 2-8 (n=2); Bailey-III-NL (n=3)).

Bij twee deelnemers was afname niet mogelijk (geen toestemming (n=2); geen medewerking (n=1)).

** Op basis van klinische beoordeling werden twee studiegroepen onderscheiden: 1. Lichte/matige VB, 2. Ernstige/zeer ernstige VB.

3.2. Acceptatie van de WatchPAT

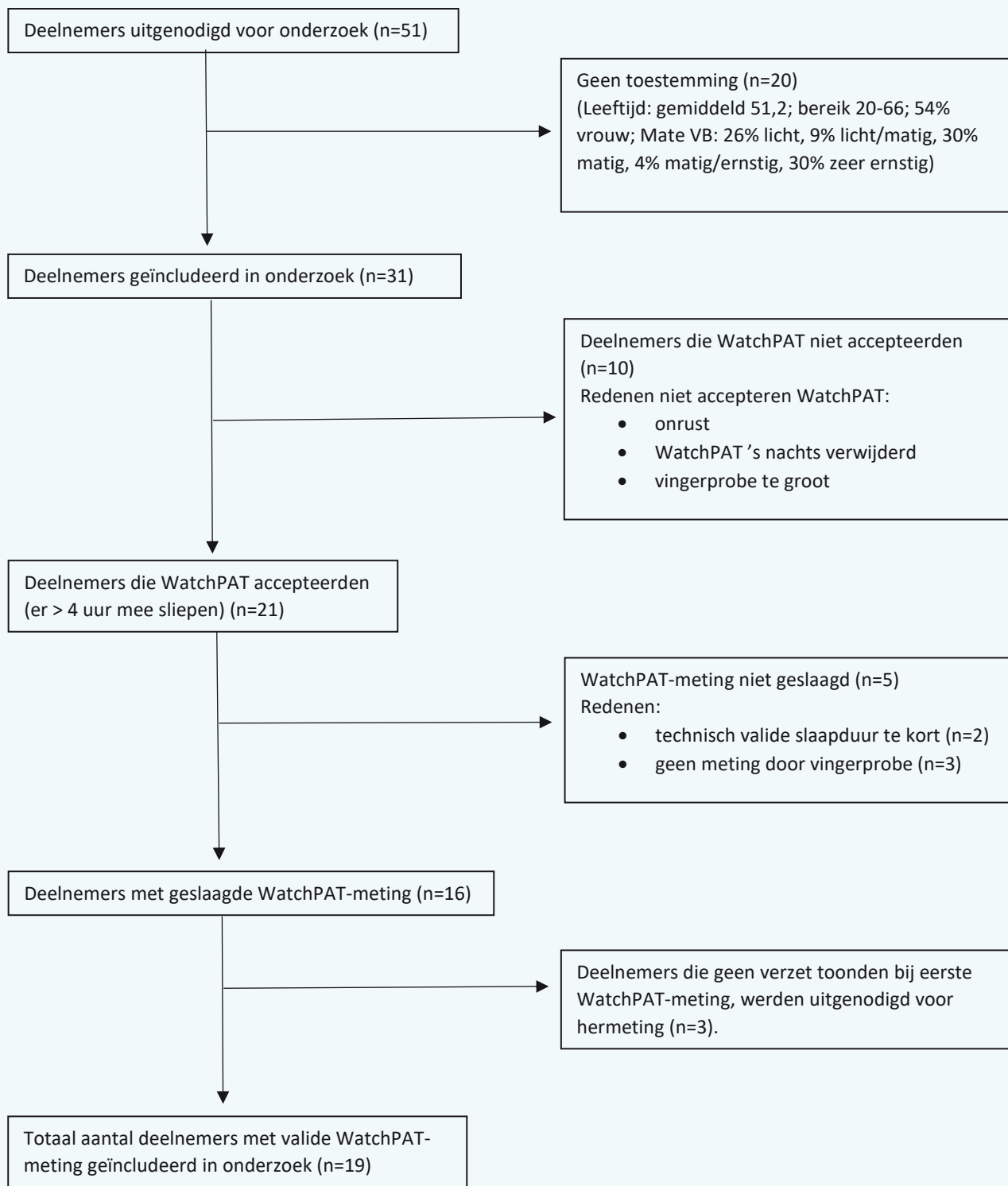
Van de 31 cliënten accepteerden 21 (68%) de WatchPAT, d.w.z. ze sliepen er minstens 4 uur mee. Uiteindelijk werden negentien geslaagde metingen geïncludeerd. Figuur 1 toont een stroomschema van de inclusie, waarbij ook de redenen voor het niet accepteren van de WatchPAT zijn aangegeven. Tabel 1 geeft een vergelijking weer van de kenmerken van de cliënten die de WatchPAT wel accepteerden en de cliënten die dat niet deden. Duidelijk is dat jongere cliënten en cliënten met lichte/matige VB de WatchPAT vaker accepteerden dan oudere cliënten en cliënten met (zeer) ernstige VB.

3.3. Slaapapneu vaststellen met de WatchPAT

3.3.1. Resultaten van de WatchPAT

Van de negentien cliënten met een geslaagde meting had één geen slaapapneu (5%); zeven hadden lichte slaapapneu (37%), vijf matige slaapapneu (26%) en zes ernstige slaapapneu (32%). Bij alle cliënten met slaapapneu was sprake van het obstructieve type; bij twee van hen in combinatie met centrale slaapapneu. Zes cliënten hadden houdingsafhankelijke slaapapneu, van wie één REM-slaapafhankelijk.

Figuur 1. Stroomschema inclusie deelnemers.



3.3.2. Huidige praktijk

Tabel 2 toont een vergelijking van de uitkomsten van de WatchPAT en de STOP-Bang. Volgens de STOP-Bang had 58% van de deelnemers een laag risico op slaapapneu, terwijl volgens de WatchPAT sprake was van lichte, matige of ernstige slaapapneu. Deelnemers die bij de STOP-Bang een hoog risico op slaapapneu scoorden, hadden volgens de WatchPAT inderdaad ernstige slaapapneu.

3.3.3. Interbeoordelaarsbetrouwbaarheid

De interbeoordelaarsbetrouwbaarheid voor de mate van slaapapneu (geen, licht, matig, ernstig) bleek goed tot nagevoeg perfect: tussen arts 1 en 2 was de kappa-waarde (k) 0.91 (overeenkomstpercentage 94%), tussen arts 1 en de VS 0.71 (79%) en tussen arts 2 en de VS 0.91 (94%).

3.4. Ervaringen van cliënten, zorgverleners en medici

3.4.1. Cliënten

Van de 31 cliënten voltooiden 24 de vragenlijst over hun

ervaringen met de WatchPAT. Zoals Tabel 3 laat zien, verschillen deze ervaringen: hoewel de meeste cliënten positief waren, had een aanzienlijk aantal een negatiever oordeel.

3.4.2. Zorgverleners

In totaal vulden 29 zorgverleners de vragenlijst in. Tien van hen werden daarnaast geïnterviewd. Tabel 4 toont hun kenmerken en Tabel 5 de uitkomsten van de MIDI-vragenlijst.

De meeste zorgverleners vonden de instructies helder (97%) en volledig (93%) en de WatchPAT niet moeilijk in gebruik (97%). Ook had het merendeel voldoende kennis om het apparaatje te gebruiken (86%) en konden velen zo nodig rekenen op hulp van collega's (83%). In mindere mate waren zorgverleners het erover eens of de WatchPAT geschikt is voor alle mensen met downsyndroom en of zij het apparaatje allemaal zullen accepteren.

Uit de thematische analyse van de interviews kwamen vier thema's naar voren: relevantie, werken met de WatchPAT,

Tabel 2.

Vergelijking conclusies WatchPAT en STOP-Bang

	STOP-Bang		
	Laag risico (N=12)	Intermediair risico (N=5)	Hoog risico (N=2)
WatchPAT			
Geen slaapapneu (N=1)	1 (5%)	–	–
Lichte slaapapneu (N=7)	4 (21%)	3 (16%)	–
Matige slaapapneu (N=5)	3 (16%)	2 (11%)	–
Ernstige slaapapneu (N=6)	4 (21%)	–	2 (11%)

Tabel 3.

Ervaringen van cliënten met de WatchPAT

Item	Positief	Neutraal	Negatief
Ik vond het omdoen van de WatchPAT interessant.	9 (38%)	4 (17%)	11 (46%)
Ik kan de WatchPAT afdoen als ik dat wil.	9 (43%)	6 (29)	6 (29%)
Ik wilde de WatchPAT omhouden tijdens het slapen.	11 (48%)	1 (3%)	11 (48%)
Ik heb van tevoren uitleg gekregen over de WatchPAT.	19 (79%)	2 (8%)	3 (13%)
Ik weet waarom ik de WatchPAT draag.	12 (52%)	5 (22%)	6 (26%)
Ik vond de uitleg van de begeleider duidelijk.	14 (58%)	5 (21%)	5 (21%)
Ik voelde me vertrouwd toen de begeleider de WatchPAT bij mij omdeed.	15 (65%)	1 (4%)	7 (30%)

Tabel 4.

Kenmerken zorgverleners

Kenmerken	Deelnemers totaal N=29
Leeftijd (jr)	
Gemiddelde ± SD	42,0 ± 15,4
Bereik	20-74
Geslacht (man)	3 (10%)
Zorgrelatie	
Professioneel zorgverlener	25 (86%)
Ouder	4 (14%)
Hoe lang kent u de cliënt	
< 2 jaar	9 (31%)
2-5 jaar	7 (24%)
5-10 jaar	6 (21%)
10-20 jaar	1 (3%)
> 20 jaar	6 (21%)

Tabel 5.

Ervaringen van zorgverleners met de WatchPAT

Item	Eens	Neutraal	Oneens
De WatchPAT-instructie geeft helder aan welke activiteiten ik in welke volgorde moet uitvoeren.	28 (97%)	0 (0%)	1 (3%)
De WatchPAT biedt alle informatie en materialen die nodig zijn om er goed mee te kunnen werken.	27 (93%)	0 (0%)	2 (7%)
De WatchPAT is te ingewikkeld voor mij om te kunnen gebruiken.	1 (3%)	0 (0%)	28 (97%)
Ik vind de WatchPAT geschikt voor mijn cliënt.	11 (38%)	9 (32%)	8 (29%)
Het gebruik van de WatchPAT heeft voordelen.	16 (54%)	10 (35%)	3 (10%)
Het gebruik van de WatchPAT heeft nadelen.	12 (41%)	6 (21%)	11 (38%)
Ik verwacht dat cliënten waar ik mee werk over het algemeen zullen meewerken als ik de WatchPAT gebruik.	22 (76%)	5 (17%)	2 (7%)
Ik vind het bij mijn functie horen om de WatchPAT te gebruiken.	17 (60%)	7 (24%)	5 (17%)
Cliënten zullen over het algemeen meewerken als ik de WatchPAT gebruik.	7 (24%)	14 (48%)	8 (28%)
Ik kan op voldoende hulp van mijn collega's rekenen mocht ik die nodig hebben bij het gebruik van de WatchPAT.	24 (83%)	0 (0%)	5 (17%)
Ik beschik over voldoende kennis om de WatchPAT te gebruiken.	25 (86%)	2 (7%)	2 (7%)
Indien u dat zou willen, denkt u dat het u dan lukt om de WatchPAT bij elke cliënt uit te voeren?	2 (7%)	14 (48%)	15 (45%)
Onze organisatie stelt mij voldoende tijd beschikbaar om de WatchPAT zoals bedoeld te integreren in mijn werk.	16 (56%)	9 (31%)	4 (13%)

impact op cliënten en toekomstige implementatie. Figuur 2 toont de thema's en de categorieën daarbinnen. Hierna worden ze in meer detail beschreven.

3.4.2.1. Thema: Relevantie

Vrijwel alle zorgverleners vonden het belangrijk om slaappneu te vast te stellen zodat een behandeling kan worden ingezet die de kwaliteit van leven van de cliënt mogelijk verbetert. Ten opzichte van polysomnografie biedt de WatchPAT volgens zorgverleners voordelen: metingen kunnen plaatsvinden in een veilige, bekende omgeving, wat minder belastend is voor de cliënt. Ook gaven ze aan het vast te stellen van slaappneu belangrijk te vinden omdat dit een verklaring kan geven wanneer de cliënt overdag moe is of in slaap valt.

Het kan gewoon thuis, op de veilige basis, zeg maar. Ik denk dat dat een groot voordeel is. En ze slapen in hun eigen bed, in hun eigen omgeving. Dat zijn volgens mij altijd pluspunten. (Zorgverlener 7)

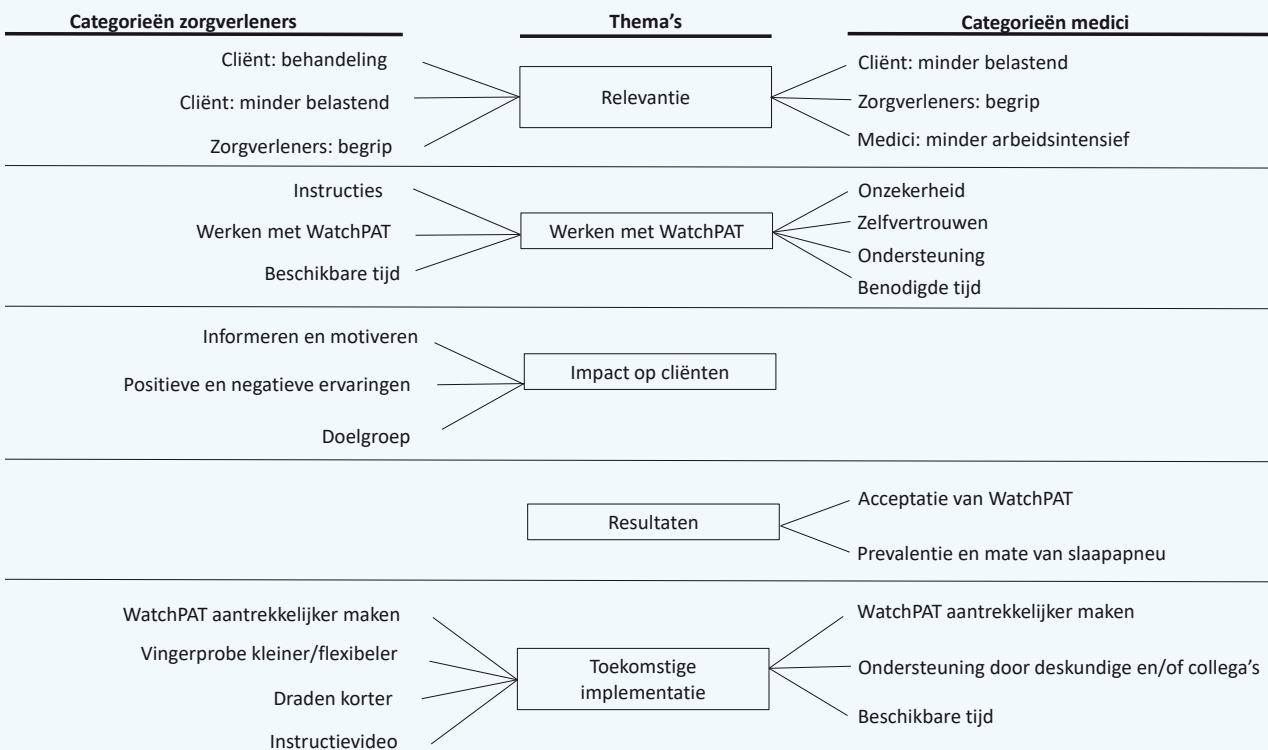


3.4.2.2. Thema: Werken met de WatchPAT

Volgens de uitkomsten van de MIDI-vragenlijst vonden zorgverleners de instructies voor de WatchPAT helder en het gebruik eenvoudig. Om een meting te laten slagen, moest de vingerprobe correct over de vinger worden geplaatst, waarbij

eerst de plakstrip moest worden verwijderd om een vacuüm te creëren, wat enkele zorgverleners vrij lastig vonden. Sommige zorgverleners gaven aan dat ze binnen hun werkzaamheden voldoende tijd hadden, terwijl anderen aangaven onvoldoende

Figuur 2.



tijd te hebben. Zodra een zorgverlener door tijdgebrek stress ervaarde, leidde dit tot weerstand bij de cliënt.

Het is heel klein, het is een horloge en je moet op 'start' drukken, meer hoeft je niet te doen. Ja, hopen dat de cliënt het omhoudt. Het is niet dat je alles eromheen hoeft te organiseren. Vond ik heel prettig. (Zorgverlener 1)

Je moet er even aan denken, dat is het enige. Het even in de agenda zetten, verder niets lastigs. (Zorgverlener 8)

3.4.2.3. Thema: Impact op cliënten

Zorgverleners informeerden en motiveerden cliënten op uiteenlopende manieren, bijvoorbeeld door hen de specifieke nacht te laten kiezen voor het dragen van de WatchPAT of door de WatchPAT te 'verkopen' door te vertellen dat het belangrijk, een heel mooi horloge of iets speciaals is. Daarnaast gaven ze aan dat het van belang is de tijd te nemen om de cliënt te informeren.

Als ik had gezegd 'morgen gaan we het inzetten', dan weet ik niet of het was gelukt. Nu dacht ik het moet binnen een week gebeuren, dus vroeg ik 'wanneer wil je het?'. Dat is toch een stukje eigen regie. (Zorgverlener 1)

Door [de WatchPAT] de hemel in te prijzen, het speciaal te maken, alleen voor jou, het uniek te maken. (Zorgverlener 5)

Volgens zorgverleners vonden meerdere cliënten de WatchPAT interessant of 'cool'. Sommigen waren trots dat de meting was gelukt. Daar staat tegenover dat anderen de WatchPAT spannend of eng vonden, onrustig werden of associaties hadden met ziek zijn. Veel cliënten die de WatchPAT niet accepteerden, vonden de vingerprobe vervelend. Ook sensorische overprikkeling werd genoemd als reden voor het niet accepteren.

Met de draden zat ze te spelen. Ze gooide [een paar onderdelen] op de grond en ze speelde met de rest. Ze heeft het als speelgoed gebruikt (...) Ze is erg lichaamsgebonden, ze functioneert op het niveau van 1,5 à 2 jaar en dit klopt niet in haar plaatje, dit hoort er niet te zitten. (Zorgverlener 4)

Zorgverleners hadden verschillende ideeën over voor wie de WatchPAT geschikt zou zijn. Verscheidene zorgverleners gaven aan dat cliënten met lichte VB de WatchPAT waarschijnlijk eerder accepteren, terwijl anderen vermoedden dat de acceptatie beter is onder cliënten met (zeer) ernstige VB. Daarnaast verwachtten zorgverleners dat acceptatie van de WatchPAT lastiger is bij cliënten op hogere leeftijd, met dementie, die veel structuur nodig hebben of die tijdens de slaap veel bewegen. Meerdere zorgverleners gaven aan dat ze het bij alle cliënten wel willen proberen.

Ik kan heel hard roepen dat het niets wordt, maar als we het niet proberen, hoe weten we het dan? (Zorgverlener 4)

3.4.2.4. Thema: Toekomstige implementatie

De voorstellen van de zorgverleners hadden met name betrekking op verbetering van de WatchPAT zelf, bijvoorbeeld door het horloge aantrekkelijker, kleiner en lichter te maken. Omdat meerdere deelnemers de vingerprobe vervelend vonden, stelden zorgverleners voor een kleinere probe te ontwikkelen of flexibeler materiaal te gebruiken, zodat de probe meebuigt met de vinger. Ook werden kortere draden tussen het horloge en de borstsensor aangeraden, onder meer om het in de ogen van de zorgverlener mogelijk aanwezig risico op verstikking te verkleinen.

3.4.3. Medici

Uit de interviews met de vier medici die betrokken waren bij het interpreteren van de WatchPAT-rapportage en het beoordelen van de metingen, kwamen vier hoofdthema's naar voren: relevantie, werken met de WatchPAT, resultaten en toekomstige implementatie. Figuur 2 toont deze thema's, die hierna verder worden beschreven.

3.4.3.1. Thema: Relevantie

Alle medici vonden het belangrijk het slaappatroon in kaart te brengen, omdat dit kan verklaren waarom de cliënt slecht slaapt of overdag moe is. Allen gaven aan dat de WatchPAT een eenvoudig toepasbaar instrument is. Ook gaven ze aan dat het (in vergelijking met polysomnografie) minder belastend is voor cliënten en dat ze de metingen (in vergelijking met actigrafie) in kortere tijd kunnen interpreteren. Anders dan bij polysomnografie kunnen medici de WatchPAT-gegevens zelf interpreteren en zijn er geen gespecialiseerde voorzieningen en apparatuur nodig.

Het is natuurlijk veel minder belastend dan een polysomnografie, met al die draadjes en een nacht elders [in een slaapcentrum] slapen. (Arts 3)

3.4.3.2. Thema: Werken met de WatchPAT

Hoewel de medici de WatchPAT-trainingen als nuttig en interessant ervaarden, vonden ze de interpretatie van de metingen aanvankelijk ingewikkeld. In het begin leidde dit tot onzekerheid en ervaarden sommigen een drempel, maar naarmate ze meer rapportages en metingen hadden geïnterpreteerd, ontstond er meer zelfvertrouwen. Ook de handleiding die handvatten bood en de bevestiging van hun conclusies door een externe deskundige deden het vertrouwen toenemen. De benodigde tijd voor de interpretatie varieerde sterk. Hoe complexer de casus en hoe meer de metingen gecontroleerd en aangepast moesten worden, hoe meer tijd er nodig was.



Ik vond het eigenlijk heel leuk, maar in het begin ook een uitdaging. Zeker bij de eerste trainingen dacht ik ook wel oh, waar ben ik aan begonnen. Je ziet best ingewikkelde patronen als de meting is gedaan. Maar naarmate je er meer gezien had, werd het steeds makkelijker. (Arts 1)

Het is net als rijles. Uiteindelijk zul je het gewoon zelf moeten doen. Je moet meters maken om te weten wat je doet. (Arts 2)

Een paar [gevallen] waren zo duidelijk waren dat ik dacht hier ga ik de ruwe data niet in, want één meer of minder maakt voor de uiteindelijke uitslag niks uit. Ik vond vooral de twijfelgevallen lastig, waarbij je net op het randje zat van lichte of ernstige [apneu] (...) Die namen ook de meeste tijd. Dan dacht ik als ik er nog dingen [events] uit kan gooien, dan heeft dat echt wel effect op de officiële uitslag. (VS)

3.4.3.3. Thema: Resultaten

De medici waren verrast dat meer cliënten de WatchPAT accepteerden dan ze hadden verwacht. Ze hadden gerekend op meer problemen met de vingerprobe. De meeste medici vonden het opmerkelijk dat vrijwel alle cliënten een zekere mate van slaapapneu hadden. Ze waren ook geschokt door de ernst van de slaapapneu bij sommige cliënten.

Wat (...) heel erg opvalt is dat heel veel [cliënten] het toch wel accepteren. (...) Bij de vingerprobe had ik echt wel mijn twijfels: gaan ze die wel accepteren? (Arts 1)

Het viel me op dat heel veel mensen behoorlijke apneus hebben. En ook dat er mensen bij zijn die het bijna de hele nacht hebben. Er was één met een pAHI van ongeveer 90. We dachten echt: hoe kan die overdag ooit functioneren? Ja, ik vond het wel schokkend. (VS)

3.4.3.4. Thema: Toekomstige implementatie

Alle medici adviseerden om de WatchPAT te implementeren voor toekomstig gebruik. Ze gaven hierbij aan dat vooraf aan enkele voorwaarden moet worden voldaan, bijvoorbeeld dat voldoende tijd moet worden uitgetrokken voor het interpreteren van de rapportages en dat bij vragen en lastige gevallen een externe deskundige moet kunnen worden geraadpleegd. Om het interpreteren van rapportages goed onder de knie te krijgen en houden, is het raadzaam dat een kleine groep medici binnen een zorginstelling hiervoor verantwoordelijk is. Tot slot stelde een medicus voor het apparaatje aantrekkelijker te maken, met verschillende dessins, zodat de cliënt de variant kan kiezen die hij/zij het leukst vindt, wat de acceptatie kan vergroten.

Ik denk dat je het bij een klein groepje [medici] moet laten (...) Als iedereen het kan, doe je het allemaal maar een paar keer per jaar. Dat is qua tijdsinvestering heel mooi, maar dan krijg je er ook niet echt feeling voor, denk ik. (Arts 1)

4. Discussie

In ons onderzoek accepteerde 68% van de deelnemers de WatchPAT. Van hen bleek 95% slaapapneu te hebben. Slaapproblemen worden vaak gerapporteerd bij mensen met downsyndroom⁹ en de door ons gevonden prevalentie is grotendeels in overeenstemming met eerdere studies, zoals Giménez e.a.¹⁰ (78%) en Trois e.a.¹³ (94%) Het lagere door Giménez gevonden percentage kan worden verklaard doordat de deelnemers aan deze studie jonger waren en lichte/matige VB hadden.

In ons onderzoek accepteerde ongeveer twee derde van de deelnemers de WatchPAT, meer dan de medici vooraf hadden verwacht. Hoewel bleek dat de kans op acceptatie van de WatchPAT bij jongere cliënten en cliënten met lichte/matige VB statistisch significant hoger was, waren er ook verscheidene oudere cliënten en cliënten met (zeer) ernstige VB die de WatchPAT accepteerden. Met het oog op de hoge prevalentie van slaapapneu onder mensen met downsyndroom is het raadzaam alle cliënten met de WatchPAT te screenen, ongeacht hun leeftijd en mate van VB. Om aan de WatchPAT te wennen, konden cliënten gebruikmaken van een dummy. Verscheidene zorgverleners dachten dat de cliënt meteen met de echte WatchPAT zou kunnen slapen, wat in alle gevallen succesvol verliep. Niettemin bleek uit interviews ook dat twee nachten met een dummy voor sommige cliënten niet genoeg was om aan het apparaatje gewend te raken. Het is dan ook aan te raden zorgverleners te laten inschatten of en hoe lang een dummy nodig is.

Voor de mate van slaapapneu bleek de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid tussen de twee artsen nagenoeg perfect, wat aangeeft dat hun persoonlijke achtergrond de interpretatie van de WatchPAT-metingen niet beïnvloedde. De interbeoorde-

laarsbetrouwbaarheid tussen de arts en VS varieerde van goed (0.71) tot nagenoeg perfect (0.91), wat duidelijk maakt dat niet alleen een arts maar ook een VS de data kan interpreteren. Dit draagt bij aan de haalbaarheid om de WatchPAT in zorginstellingen te implementeren.

Uit ons onderzoek bleek een aanzienlijk verschil tussen de subjectieve STOP-Bang-scores en de objectieve resultaten van de WatchPAT-metingen. Dit toont aan dat slaapstoornissen bij cliënten met downsyndroom, zoals ook onderzocht in eerdere studies^{10,43,44}, onvoldoende in kaart worden gebracht met vragenlijsten die bij informanten worden afgenomen (zoals de STOP-Bang). Dit komt mogelijk doordat vragenlijstcores zijn gebaseerd op de perceptie van zorgverleners, die (anders dan partners) doorgaans 's nachts niet in de slaapkamer aanwezig zijn, waardoor zij vragen over bijvoorbeeld snurken lastig kunnen beantwoorden. Omdat er geen gevalideerde vragenlijsten zijn voor het screenen van slaapapneu bij mensen met downsyndroom, gebruikten we de STOP-Bang, die in de algemene bevolking zeer accuraat is gebleken.³⁵ De STOP-Bang gaf bij de cliënten in ons onderzoek een onjuist laag risico aan. Dit wijst erop dat zorgverleners snurken en vermoeidheid te weinig signaleren. Het is dan ook raadzaam om slaapapneu te detecteren met objectieve screeningmethodes.

4.1. Sterktes van het onderzoek

Voor zover ons bekend is dit het eerste onderzoek naar de haalbaarheid van het vaststellen van slaapapneu met de WatchPAT bij mensen met downsyndroom, een doelgroep met een hoog risico op deze slaapstoornis. Door een combinatie van kwantitatieve en kwalitatieve methodes, waarin ook de ervaringen van mensen met downsyndroom, zorgverleners en medici werden meegenomen, konden we de haalbaarheid vanuit verschillende perspectieven beoordelen.

4.2. Beperkingen van het onderzoek

Ons onderzoek kent verschillende beperkingen. Ten eerste streefden we bij het werven van deelnemers naar variatie in mate van VB. Na beoordeling van de deelnemers bleken

'Vroege detectie van slaapapneu is belangrijk. Onbehandelde slaapapneu kan leiden tot hart- en vaatziekten, verhoogde mortaliteit, slaperigheid overdag en verminderd cognitief functioneren.'

cliënten met lichte VB echter ondervetegenwoordigd. Ten tweede baseerden we de mate van VB alleen op de uitkomst van een intelligentietest, waarbij het adaptief functioneren buiten beschouwing bleef. Ten derde vergeleken we de WatchPAT-data niet met de uitkomsten van polysomnografie omdat deze voor mensen met downsyndroom vaak te belastend is, wat ook de reden is dat slaapapneu bij deze doelgroep tot op heden wordt ondergediagnosticeerd.¹⁴

4.3. Toekomstige implicaties

Uit dit onderzoek blijkt dat de WatchPAT relatief laagdrempelig in zorginstellingen kan worden geïmplementeerd. Enkele aanpassingen aan het apparaatje en voldoende tijd voor zorgverleners kunnen de acceptatie vergroten. De WatchPAT kan worden gebruikt als voorkeursinstrument voor het vaststellen van slaapapneu bij mensen met downsyndroom. Polysomnografie kan dan worden beperkt tot second opinions en nader onderzoek bij complexe cases.

Binnen de algemene bevolking is op basis van de Apneu-Hypopneu Index al aangetoond dat de WatchPAT een geschikt alternatief is voor polysomnografie. De Apneu-Hypopneu Index die door de WatchPAT worden berekend, zijn positief gecorreleerd met de door polysomnografie verkregen Apneu-Hypopneu Index.¹⁴ Toekomstig onderzoek zal moeten aantonen of dit ook bij mensen met downsyndroom het geval is.

Vroege detectie van slaapapneu is belangrijk omdat onbehandelde slaapapneu kan leiden tot hart- en vaatziekten, verhoogde mortaliteit, slaperigheid overdag en verminderd cognitief functioneren.^{13,17,20} Behandeling van slaapstoornissen kan de cognitie en kwaliteit van leven van mensen met downsyndroom verbeteren.¹⁰ Bovendien kan de aanwezigheid van slaapapneu leiden tot eerdere cognitieve achteruitgang en de progressie van dementie versnellen^{4,20} doordat door verstoring van de slaap de ophoping van amyloïden in de hersenen toeneemt^{45,46}. Omdat uit de literatuur blijkt dat slaapapneu ook veel voorkomt bij kinderen met downsyndroom^{47–49}, is het raadzaam een WatchPAT-algoritme voor kinderen te ontwikkelen, zodat slaapapneu ook bij hen in een vroeg stadium kan worden vastgesteld. Dit is belangrijk omdat verstoring van de ademhaling tijdens de slaap bij kinderen in verband wordt gebracht met groeiachterstand, cardiopulmonale complicaties en gedragsproblemen.^{50,51}

5. Conclusie

Uit dit onderzoek blijkt dat de WatchPAT een veelbelovend hulpmiddel is om slaapapneu vast te stellen bij mensen met downsyndroom omdat het minder ingrijpend en belastend is in vergelijking met polysomnografie.

Financiering

Dit onderzoek werd gefinancierd door de afdeling Praktijkgericht Wetenschappelijk Onderzoek (PWO) van Alliade. Ten

behoefte van het onderzoek stelde Itamar Medical Ltd kosteloos WatchPAT's beschikbaar; ook de bijbehorende trainingen verzorgde het bedrijf kosteloos.

Belangenverstrengeling

De auteurs verklaren dat er geen sprake is van belangenverstrengeling en dat zij onafhankelijk hebben gehandeld; Itamar Medical Ltd had geen invloed op de onderzoeksopzet, dataverzameling, analyses, interpretatie en rapportage.

Dankbetuiging

De auteurs willen alle cliënten met downsyndroom en hun verzorgers bedanken voor deelname aan dit onderzoek. Daarnaast bedanken we verschillende collega's van Alliade: Andrea Fokkens (onderzoeker) voor haar bijdrage aan het concept en de opzet van het onderzoek; Femke Eijckeler en Judith Peters (artsen VG) voor de afname van de STOP-Bang-vragenlijsten en interpretatie van de WatchPAT-resultaten in het kader van de interbeoordelaarsbetrouwbaarheid; Roelie Fopma (gedragskundige) voor het werven van deelnemers en bepalen van hun mate van VB; Ineke Lensen (psychodiagnostisch medewerker) en Karen van Huizen (gedragskundige) voor de afname van intelligentietesten; Angélique Galema (secretaresse) voor haar organisatorische bijdrage; Arjan Vogt (businessanalist) voor assistentie bij de software; Baukelina Vries (communicatiemedewerker) voor het redigeren van het Engelstalige artikel en het maken van de informatiefolder en toestemmingsformulieren; Martha Martens (communicatiemedewerker) voor de Nederlandse vertaling van het Engelstalige artikel.

Referenties

- Referentie oorspronkelijke, Engelstalige artikel:
Alma MA, Nijenhuis-Huls R, de Jong Z, Ulgiati AM, de Vries A, Dekker AD. Detecting sleep apnea in adults with Down syndrome using WatchPAT: A feasibility study. *Research in Developmental Disabilities*, 2022; 129, 104302. <https://doi.org/10.1016/j.ridd.2022.104302>
1. Mayo Clinic. Sleep apnea - Symptoms and causes. 2022 [geraadpleegd 2022 sep 21]. Beschikbaar via: <https://www.mayoclinic.org/diseases-conditions/sleep-apnea/symptoms-causes/syc-20377631>
 2. Lettieri CJ, Eliasson AH, Andrada T, Khramtsov A, Raphaelson M, Kristo DA. Obstructive sleep apnea syndrome: are we missing an at-risk population? *J Clin Sleep Med*. 2005;1(4):381–5.
 3. Shahar E, Whitney CW, Redline S, Lee ET, Newman AB, Nieto FJ, e.a. Sleep-disordered breathing and cardiovascular disease: cross-sectional results of the Sleep Heart Health Study. *Am J Respir Crit Care Med*. 2001;163(1):19–25.
 4. Chen CC, Spanò G, Edgin JO. The impact of sleep disruption on executive function in Down syndrome. *Res Dev Disabil*. 2013;34(6):2033–9.
 5. Rundo JV. Obstructive sleep apnea basics. *Cleve Clin J Med*. 2019;86:1–8.
 6. Turkington PM, Sircar M, Allgar V, Elliott MW. Relationship between obstructive sleep apnoea, driving simulator performance, and risk of road traffic accidents. *Thorax*. 2001;56(10):800–5.
 7. Marshall NS, Wong KKH, Liu PY, Cullen SRJ, Knuijan MW, Grunstein RR. Sleep apnea as an independent risk factor for all-cause mortality: The Busselton Health Study. *Sleep*. 2008;31(8):1079–85.

8. Young T, Finn L, Peppard PE, Szklo-Coxe M, Austin D, Javier Nieto F, e.a. Sleep disordered breathing and mortality: eighteen-year follow-up of the Wisconsin sleep cohort. *Sleep*. 2008;31(8):1071–8.
9. Lal C, White DR, Joseph JE, van Bakergem K, LaRosa A. Sleep-disordered breathing in Down syndrome. *Chest*. 2015;147(2):570–9.
10. Giménez S, Videla L, Romero S, Benejam B, Clos S, Fernández S, e.a. Prevalence of sleep disorders in adults with Down syndrome: a comparative study of self-reported, actigraphic, and polysomnographic findings. *J Clin Sleep Med*. 2018;14(10):1725–33.
11. Benjafield A v, Eastwood PR, Heinzer R, Morrell MJ, Federal U, Paulo DS, e.a. Estimation of the global prevalence and burden of obstructive sleep apnoea: a literature-based analysis. *Lancet Respir Med*. 2020;7(8):687–98.
12. Young T, Palta M, Dempsey J, Skatrud J, Weber S, Badr S. The occurrence of sleep-disordered breathing among middle-aged adults. *N Engl J Med*. 1993;328(17):1230–5.
13. Trois MS, Capone GT, Lutz JA, Melendres MC, Schwartz AR, Collop NA, e.a. Obstructive sleep apnea in adults with Down syndrome. *J Clin Sleep Med*. 2009;5(4):317–23.
14. Yalamanchali S, Farajian V, Hamilton C, Pott TR, Samuelson CG, Friedman M. Diagnosis of obstructive sleep apnea by peripheral arterial tonometry: meta-analysis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2013;139(12):1343–50.
15. Chiu HY, Chen PY, Chuang LP, Chen NH, Tu YK, Hsieh YJ, e.a. Diagnostic accuracy of the Berlin questionnaire, STOP-BANG, STOP, and Epworth sleepiness scale in detecting obstructive sleep apnea: a bivariate meta-analysis. *Sleep Med Rev*. 2017;36:57–70.
16. de Carvalho AA, Amorim FF, Santana LA, de Almeida KJQ, Santana ANC, de Assis Rocha Neves F. STOP-Bang questionnaire should be used in all adults with down Syndrome to screen for moderate to severe obstructive sleep apnea. *PLoS One*. 2020;15(5):1–13.
17. Simpson R, Oyekan AA, Ehsan Z, Ingram DG. Obstructive sleep apnea in patients with Down syndrome: current perspectives. *Nat Sci Sleep*. 2018;10:287–93.
18. Moriconi C, Schlamb C, Harrison B. Down syndrome and dementia: guide to identification, screening, and management. *J Nurse Pract*. 2015;11(8):812–8.
19. Dekker AD, Strydom A, Coppus AMW, Nizetic D, Vermeiren Y, Naudé PJW, e.a. Behavioural and psychological symptoms of dementia in Down syndrome: early indicators of clinical Alzheimer's disease? *Cortex*. 2015;73:36–61.
20. Giménez S, Altuna M, Blessing E, Osorio RM, Fortea J. Sleep disorders in adults with down syndrome. *J Clin Med*. 2021;10(14):1–16.
21. Krishnaswamy U, Aneja A, Mohan Kumar R, Prasanna Kumar T. Utility of portable monitoring in the diagnosis of obstructive sleep apnea. *J Postgrad Med*. 2015;61:223–9.
22. Itamar Medical Ltd. Itamar Medical CloudPat Operation Manual, version 2.10. 2020.
23. Jen R, Orr JE, Li Y, DeYoung P, Smales E, Malhotra A, e.a. Accuracy of WatchPAT for the diagnosis of obstructive sleep apnea in patients with chronic obstructive pulmonary disease. *COPD*. 2020;17(1):34–9.
24. Pang KP, Gourin CG, Terris DJ. A comparison of polysomnography and the WatchPAT in the diagnosis of obstructive sleep apnea. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2007;137(4):665–8.
25. Pillar G, Berall M, Berry R, Etzioni T, Shrater N, Hwang D, e.a. Detecting central sleep apnea in adult patients using WatchPAT—a multicenter validation study. *Sleep Breath*. 2020;24(1):387–98.
26. Weimin L, Rongguang W, Dongyan H, Xiaoli L, Wei J, Shiming Y. Assessment of a portable monitoring device WatchPAT 200 in the diagnosis of obstructive sleep apnea. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2013;270(12):3099–105.
27. Yucege M, Firat H, Demir A, Ardic S. Reliability of the Watch-PAT 200 in detecting sleep apnea in highway bus drivers. *J Clin Sleep Med*. 2013;9(4):339–44.
28. Tong A, Sainsbury P, Craig J. Consolidated criteria for reporting qualitative research: a 32-item checklist for interviews and focus groups. *Int J Qual Health Care*. 2018;19(6):349–57.
29. Harris PA, Taylor R, Thielke R, Payne J, Gonzalez N, Conde JG. Research electronic data capture (REDCap)—A metadata-driven methodology and workflow process for providing translational research informatics support. *J Biomed Inform*. 2009;42(2):377–81.
30. Harris PA, Taylor R, Minor BL, Elliott V, Fernandez M, Neal LO, e.a. of Software Platform Partners. *J Biomed Inform*. 2020;1–24.
31. Hurks P, Hendriksen J, Dek J, Kooij A. De nieuwe Wechsler kleuter-intelligentietest voor 2 1/2- tot 8-jarigen. *Tijdschrift voor Neuropsychologie*. 2010;5(2):40–51.
32. Tellegen P, Laros J. SON-R 2-8 niet-verbale intelligentietest. I. Verantwoording. Amsterdam: Hogrefe Uitgevers; 2017.
33. Bayley N. Bayley Scales of Infant and Toddler Development Third Edition: UK and Ireland supplement manual. Pearson Assessment and Information; 2006.
34. Chung F, Yegneswaran B, Liao P, Chung SA, Vairavanathan S, Islam S, e.a. STOP questionnaire: a tool to screen patients for obstructive sleep apnea. *Anesthesiology*. 2008;108(5):812–21.
35. Chung F, Subramanyam R, Liao P, Sasaki E, Shapiro C, Sun Y. High STOP-Bang score indicates a high probability of obstructive sleep apnoea. *Br J Anaesth*. 2012;108(5):768–75.
36. McAuley E, Duncan T, Tammam V. Psychometric properties of the intrinsic motivation inventory in a competitive sport setting: a confirmatory factor analysis. *Res Q Exerc Sport*. 1989;60(1):48–58.
37. Ryan RM, Deci EL. Self-determination theory and the facilitation of intrinsic motivation, social development, and well-being. *Am Psychol*. 2000;55(1):68–78.
38. Fleuren MAH, Paulussen TGWM, Dommelen P, Buuren S van. Measurement Instrument for Determinants of Innovations (MIDI). Leiden: TNO; 2014.
39. Fleuren MAH, Paulussen TGWM, Dommelen P, Buuren S van. Towards a measurement instrument for determinants of innovations. *Int J Qual Health Care*. 2014;26(5):501–10.
40. Landis JR, Koch GG. The measurement of observer agreement for categorical data. *Biometrics*. 1977;33(1):159.
41. Braun V, Clarke V. Using thematic analysis in psychology. *Qual Res Psychol*. 2006;3(2):77–101.
42. Elo S, Kyngäs H. The qualitative content analysis process. *J Adv Nurs*. 2008;62(1):107–15.
43. Grantham-Hill S, Evans HJ, Tuffrey C, Sanders E, Elphick HE, Gringras P, e.a. Psychometric properties and predictive value of a screening questionnaire for obstructive sleep apnea in young children with Down syndrome. *Front Psychiatry*. 2020;11:285.
44. Tadokoro K, Ohta Y, Hishikawa N, Nomura E, Wakutani Y, Takao Y, e.a. Discrepancy of subjective and objective sleep problems in Alzheimer's disease and mild cognitive impairment detected by a home-based sleep analysis. *J Clin Neurosci*. 2020;74:76–80.
45. Mullins AE, Kam K, Parekh A, Bubu OM, Osorio RS, Varga AW. Obstructive sleep apnea and its treatment in aging: effects on Alzheimer's disease biomarkers, cognition, brain structure and neurophysiology. *Neurobiol Dis*. 2020;145:105054.
46. Sharma RA, Varga AW, Bubu OM, Pirraglia E, Kam K, Parekh A, e.a. Obstructive sleep apnea severity affects amyloid burden in cognitively normal elderly: a longitudinal study. *Am J Respir Crit Care Med*. 2018;197(7):933–43.
47. Chamseddin BH, Johnson RF, Mitchell RB. Obstructive sleep apnea in children with Down syndrome: demographic, clinical, and polysomnographic features. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2019;160(1):150–7.
48. Hsieh A, Gilad A, Wong K, Cohen M, Levi J. Obstructive sleep apnea in children with Down syndrome: screening and effect of guidelines. *Clin Pediatr (Phila)*. 2019;58(9):993–9.
49. Lee CF, Lee CH, Hsueh WY, Lin MT, Kang KT. Prevalence of obstructive sleep apnea in children with Down syndrome: a meta-analysis. *J Clin Sleep Med*. 2018;14(5):867–75.
50. Marcus CL, Carroll JL, Koerner CB, Hamer A, Lutz J, Loughlin GM. Determinants of growth in children with the obstructive sleep apnea syndrome. *J Pediatr*. 1994;125(4):556–62.
51. Mitchell RB, Kelly J. Behavior, neurocognition and quality-of-life in children with sleep-disordered breathing. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2006;70(3):395–406.