

**„Schattenkinder“ im Fokus:  
Lebensqualität, Erfahrungen und Unterstützungsbedarf  
von Geschwistern  
von Kindern mit angeborenen Herzfehlern**

Inauguraldissertation

zur

Erlangung des Doktorgrades  
der Humanwissenschaftlichen Fakultät  
der Universität zu Köln  
nach der Promotionsordnung vom 18.12.2018

vorgelegt von

Alice Schamong  
aus Köln

Februar 2024

Erstbetreuung: Prof. Dr. Birgit Träuble

Zweitbetreuung: Prof. Dr. Elke Kalbe

Datum der mündlichen Prüfung: 27.08.2024

Diese Dissertation wurde von der Humanwissenschaftlichen Fakultät der Universität zu Köln im August 2024 angenommen.

*Für meine Familie  
und alle Familien mit Herzkindern in Deutschland*

### **Interessenkonflikt**

Die Promotionskandidatin hat finanzielle Unterstützung für die Durchführung, Autorenschaft und Veröffentlichung aller drei Forschungsbeiträge vom gemeinnützigen "Verein der Freunde und Förderer des Herzzentrums des Universitätsklinikums Köln e.V." erhalten. Die Förderung ihrer wissenschaftlichen Tätigkeit wurde in Form der vollständigen Finanzierung ihrer Drittmittel-geförderten Psychologenstelle in der Klinik und Poliklinik für Kinderkardiologie der Uniklinik Köln, mit einem 40-prozentigen Stellenanteil für Forschung abgedeckt. Es besteht kein potenzieller Interessenskonflikt.

### **Hinweis zur Verwendung von Begrifflichkeiten**

Aus Gründen der leichteren Lesbarkeit wird auf eine Differenzierung zwischen Kindern, Jugendlichen und jungen Menschen mit angeborenen Herzfehlern verzichtet, sodass der Begriff Kinder mit angeborenen Herzfehlern auch Jugendliche und junge Menschen miteinschließt.

### Abstract

Angeborene Herzfehler (AHF) stellen mit einer Prävalenz von fast 1% ein globales Gesundheitsproblem dar. Die Geschwister von Kindern mit AHF standen bisher jedoch nicht im Mittelpunkt des Forschungsinteresses, obwohl für sie ein erhöhtes Risiko besteht, zu ,Schattenkindern‘ zu werden. Die vorliegende Dissertation umfasst drei Forschungsbeiträge. Der erste, ein systematisches Review, ermittelte, Beeinträchtigungen des psychosozialen Wohlbefindens und der Lebensqualität (LQ) bei bis zu einem Drittel der Geschwister. Mit Beeinträchtigungen assoziiert waren ein höheres Alter, eine höhere Position in der Geburtenreihenfolge, weibliches Geschlecht, ein niedriger sozioökonomischer Status, eine vorherige Fehlgeburt oder der Verlust eines Geschwisterkindes sowie die Sichtbarkeit und höhere Komplexität der Erkrankung. Auch konnte keine Intervention identifiziert werden, die direkt auf die Geschwister abzielt. Zweitens explorierte eine Interviewstudie die Erfahrungen und den Unterstützungsbedarf der Geschwister. Zu den negativen Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF gehörten Sorgen vor einem Krankenhausaufenthalt, einer Verschlechterung des Gesundheitszustands bis hin zum Tod des Kindes mit dem AHF sowie Belastungen wie eingeschränkte Familienaktivitäten, verminderte elterliche Aufmerksamkeit und Unterstützung. Wahrgenommene positive Folgen der AHF, wie ein starker Familienzusammenhalt und Empathie gegenüber Menschen mit chronischen Erkrankungen, offene Kommunikation über die Häufigkeit sowie erfolgreiche Behandlung von AHF, gemeinsame Familienaktivitäten, und der Einbezug der Geschwister in die Planung künftiger Behandlungen halfen bei der Bewältigung der Erkrankung. Die Geschwister zeigten großes Interesse an einer künftigen Intervention, die Empathie gleichaltriger Betroffener und medizinische Informationen vereint. Drittens ergab eine Online-Querschnittstudie mit Geschwistern von Kindern mit hauptsächlich komplexeren AHF, dass die gesundheitsbezogene LQ (aus dem Englischen health-related quality of life; HRQoL) und ihre Domänen körperliches Wohlbefinden, Autonomie und Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige, schulisches Umfeld, sowie insbesondere psychologisches Wohlbefinden bei Geschwistern von Kindern mit AHF signifikant niedriger ist als bei Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes. Als Prädiktoren einer verringerten HRQoL wurden weibliches Geschlecht und Sichtbarkeit der Erkrankung identifiziert. Alle drei Studien implizieren, dass dringend Maßnahmen zur Verbesserung der LQ von Geschwistern von Kindern mit AHF, mit Fokus auf ihr psychologisches Wohlbefinden, entwickelt werden sollten. Hierzu könnten auf Basis der Ergebnisse der Interviewstudie Elemente einer AHF-spezifischen Intervention erprobt werden, die weibliche Geschwister und Geschwister von Kindern mit sichtbaren, sowie komplexeren AHF besonders berücksichtigen. Weiterhin sollten die Erkenntnisse von Mitarbeitenden im Gesundheitswesen sowie Selbsthilfevereinen direkt in die Beratung und Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit AHF und der Entlastung ihrer Eltern übernommen werden.

**Inhaltsverzeichnis**

	Seite
Abkürzungsverzeichnis .....	9
Abbildungsverzeichnis .....	10
Tabellenverzeichnis .....	11
1 Überblick über die vorliegende monografische Dissertation mit Teilpublikationen und den Eigenanteil der Promotionskandidatin .....	12
2 Einleitung .....	14
3 Begriffsklärungen: Psychosoziales Wohlbefinden, Lebensqualität und gesundheitsbezogene Lebensqualität .....	17
4 Angeborene Herzfehler .....	18
4.1 Mögliche Ursachen angeborener Herzfehler .....	19
4.2 Die Anatomie des gesunden Herzens zum Vergleich .....	20
4.3 Klassifikation und Häufigkeiten verschiedener angeborener Herzfehler .....	21
4.4 Der Ventrikelseptumdefekt: Anatomie, Symptome, Behandlung und Prognose eines simplen angeborenen Herzfehlers .....	23
4.5 Die Fallot’sche Tetralogie: Anatomie, Symptome, Behandlung und Prognose eines moderaten angeborenen Herzfehlers .....	25
4.6 Das Hypoplastische Linksherzsyndrom: Anatomie, Symptome, Behandlung und Prognose eines komplexen angeborenen Herzfehlers .....	29
4.7 Die Belastungen der Geschwister durch die Auswirkungen von angeborenen Herzfehlern auf das Familiensystem .....	32
5 Forschungslücken .....	35
6 Übergeordnete Fragestellungen der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen .....	36
7 Zusammenfassung der Teilbeiträge der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen .....	38
7.1 BEITRAG I: Psychosoziales Wohlbefinden und Lebensqualität bei Geschwistern von Kindern mit angeborenen Herzfehlern: ein systematisches Review .....	38
7.1.1 Hintergrund und Studienziele .....	38
7.1.2 Methodik .....	39
7.1.3 Ergebnisse .....	41
7.1.4 Diskussion .....	44

7.2	BEITRAG II: Eine qualitative Interviewstudie mit Eltern-Geschwister-Dyaden zur Erforschung der mit der Diagnose verbundenen Erfahrungen und des Unterstützungsbedarfs von Geschwistern von Kindern mit angeborenen Herzfehlern.....	50
7.2.1	Hintergrund und Studienziele .....	50
7.2.2	Methodik .....	51
7.2.3	Ergebnisse.....	53
7.2.4	Diskussion .....	58
7.3	BEITRAG III: Online-Querschnittstudie zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität und ihren Prädiktoren bei Geschwistern von Kindern mit angeborenem Herzfehler .....	64
7.3.1	Hintergrund und Studienziele .....	64
7.3.2	Methodik .....	65
7.3.3	Ergebnisse.....	68
7.3.4	Diskussion .....	72
8	Diskussion und Ausblick.....	77
8.1	Diskussion der übergeordneten Fragestellungen der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen.....	77
8.1.1	Anteil von Beitrag I und III zur Beantwortung der übergeordneten Fragestellung der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen .....	78
8.1.2	Anteil von Beitrag II zur Beantwortung der übergeordneten Fragestellung der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen .....	81
8.2	Implikationen für zukünftige Forschung hinsichtlich der Entwicklung einer supportiven Intervention für Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehlern.....	85
8.2.1	Ermittlung krankheitsspezifischer Themenbereiche.....	86
8.2.2	Potenzielle Elemente einer zukünftigen supportiven Intervention für Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehlern.....	86
8.2.3	Potenzielle Interventionselemente, die auf weibliche Geschwister und Geschwister von Kindern mit sichtbaren angeborenen Herzfehlern abzielen.....	87
8.2.4	Erforschung der Bewältigungsstrategien und Ressourcen der Geschwister im Sinne potenzieller Schutzfaktoren.....	87
8.2.5	Spezifizierung bereits bestehender Angebote für Geschwister .....	88
8.3	Implikationen für die praktische Unterstützung von Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehlern und ihren Familien .....	89
8.3.1	Unterstützungsmöglichkeiten im medizinischen Bereich .....	90
8.3.2	Unterstützungsmöglichkeiten im sozialen Umfeld und durch Selbsthilfevereine .....	92
8.3.3	Unterstützungsmöglichkeiten durch die Eltern.....	93

8.4	Fazit und Ausblick.....	93
9	Literaturverzeichnis.....	97
10	Anhang.....	119
11	Lebenslauf.....	224
12	Publikationsliste.....	225
13	Danksagung.....	226
14	Erklärung.....	229



### Abkürzungsverzeichnis

AHF	Angeborene/r Herzfehler
AXIS-tool	Kritisches Bewertungsinstrument zur Beurteilung der Qualität von Querschnittsstudien; aus dem Englischen: critical appraisal tool to assess the quality of cross-sectional studies
CHIP-Family	Intervention für Familien von Kindern mit AHF; aus dem Englischen: Congenital Heart Disease Intervention Program-Family
COREQ	Konsolidierte Kriterien für qualitative Studien; aus dem Englischen: consolidated criteria for qualitative studies
HLHS	Hypoplastisches Linksherzsyndrom
HRQoL	Gesundheitsbezogene Lebensqualität; aus dem Englischen: health-related quality of life
LQ	Lebensqualität
ModuS	Modulares Schulungsprogramm für chronisch kranke Kinder und Jugendliche sowie deren Familien
PRISMA	Bevorzugten Kriterien für die Berichterstattung über systematische Übersichten und Meta-Analysen; aus dem Englischen: preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses
PROSPERO	Prospektives Register für systematische Reviews; aus dem Englischen: international prospective register of systematic reviews
STROBE	Richtlinien für die Berichterstattung von Beobachtungsstudien; aus dem Englischen: strengthening the reporting of observational studies in epidemiology
VSD	Ventrikelseptumdefekt

### Abbildungsverzeichnis

	Seite
<b>Abbildung 1</b> Die Anatomie des gesunden Herzens .....	21
<b>Abbildung 2</b> Die Anatomie des VSD.....	24
<b>Abbildung 3</b> Die Anatomie der Fallot’schen Tetralogie.....	27
<b>Abbildung 4</b> Die Anatomie des HLHS.....	30
<b>Abbildung 5</b> Direkter azyklischer Graph der Beziehung zwischen den Variablen des Regressionsmodells – Beitrag III .....	71

**Tabellenverzeichnis**

	Seite
<b>Tabelle 1</b> Eckdaten und Publikationsstatus der Beiträge der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen.....	12
<b>Tabelle 2</b> Eigenanteil an den Beiträgen der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen .....	13
<b>Tabelle 3</b> Einteilung in simple, moderate und komplexe AHF .....	22
<b>Tabelle 4</b> Das Kategoriensystem – Beitrag II.....	54
<b>Tabelle 5</b> Mittlere HRQoL-Werte der Gruppe der Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehler- und Typ-1-Diabetes sowie europäische Normdaten von Jugendlichen im Alter von 12 bis 18 Jahren – Beitrag III.....	70

## 1 Überblick über die vorliegende monografische Dissertation mit Teilpublikationen und den Eigenanteil der Promotionskandidatin

Bei der vorliegenden monografischen Dissertation mit Teilpublikationen handelt es sich um eine Zusammenfassung der folgenden wissenschaftlichen Publikationen und zur Publikation eingereichten Manuskripte:

1. Schamong, A. S., Liebermann-Jordanidis, H., Brockmeier, K., Sticker, E., & Kalbe, E. (2021). Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review. *Journal of Child Health Care*, 13674935211012933
2. Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Seven, Ü., & Kalbe, E (2022). *A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease*. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.
3. Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Pytel, V., Träuble, B., & Kalbe, E (2023). *Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease*. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.

Die Eckdaten und der Publikationsstatus der drei wissenschaftlichen Teilleistungen werden in Tabelle 1 überblicksartig dargestellt.

**Tabelle 1**

*Eckdaten und Publikationsstatus der Beiträge der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen*

	Titel	Autoren	Journal	Publikationsstatus
Beitrag I	Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review	Schamong, A. S. Liebermann-Jordanidis, H. Brockmeier, K. Sticker, E. Kalbe, E.	<i>Journal of Child Health Care</i> , 2021, 13674935211012933	Publiziert
Beitrag II	A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease	Schamong, A. S. Seven, Ü. S. Folkerts, A. K. Brockmeier, K. Kalbe, E.	<i>Journal of Child Health Care</i>	In Revision
Beitrag III	Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease	Schamong, A. S. Brockmeier, K. Folkerts, A. K. Pytel, V. Träuble, B. Kalbe, E.	<i>Journal of Child Health Care</i>	In Revision

Quelle. Eigene Darstellung.

In Tabelle 2 erfolgt die Darstellung des Eigenanteils der Promotionskandidatin an den drei wissenschaftlichen Teilleistungen.

**Tabelle 2**

*Eigenanteil an den Beiträgen der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen*

	Studienkonzeption	Studienleitung	Studienvorbereitung	Datenerhebung	Datenauswertung	Manuskripterstellung	Manuskriptrevision
Beitrag I	Schamong Kalbe	Schamong Brockmeier Kalbe	Schamong Kalbe	Schamong	Schamong	Schamong	Brockmeier Liebermann- Jordanidis Sticker Kalbe
Beitrag II	Schamong Kalbe	Schamong Brockmeier Kalbe	Schamong Folkerts Seven Kalbe	Schamong	Schamong Seven	Schamong	Brockmeier Folkerts Seven Kalbe
Beitrag III	Schamong Folkerts Träuble Kalbe	Schamong Brockmeier Kalbe	Schamong Folkerts Kalbe	Schamong Pytel	Schamong Pytel	Schamong	Brockmeier Folkerts Pytel Träuble Kalbe

Quelle. Eigene Darstellung.

## 2 Einleitung

Angeborene Herzfehler (AHF) stellen ein großes globales Gesundheitsproblem dar (Casey, 2016; Zimmerman et al., 2020) und sind mit einer Prävalenz von fast 1% (Lindinger et al., 2010; Liu et al., 2019; Van Der Linde et al., 2011) weltweit die führende Ursache für Morbidität und Mortalität aufgrund von Geburtsfehlern (Su et al., 2022; Zimmerman et al., 2020). Sie gehören außerdem zu den Fehlbildungen, die bei Kindern zu den längsten Krankenhausaufenthalten und den höchsten durchschnittlichen Krankenhauskosten weltweit führen (Wei et al., 2015). Die Geburtsprävalenz von AHF ist im Laufe der Zeit erheblich gestiegen, von 0.6 pro 1.000 Lebendgeburten im Jahr 1930 auf etwa neun pro 1.000 Lebendgeburten nach 1995, was auf umfassende Durchbrüche in der kardiovaskulären Diagnostik und Herzchirurgie in den letzten Jahrzehnten zurückzuführen ist (Van Der Linde et al., 2011). In Deutschland werden jährlich ca. 6.000 Kinder mit einem AHF geboren (März, 2021; Yamamoto & Schindler, 2016). Insgesamt machen simple AHF, die in den meisten Fällen mit einem einzigen Herzkathetereingriff oder einer einmaligen Herzoperation strukturell korrigiert werden können, etwa 60% aller AHF aus (Lindinger et al., 2011; Liu et al., 2019). Die restlichen 40% entfallen auf moderate und komplexe AHF, die in der Regel wiederkehrende Interventionen in Form von diagnostischen sowie interventionellen Herzkathetereingriffen und Herzoperationen nach sich ziehen (Lindinger et al., 2011; Liu et al., 2019). Während etwa 20-30% aller AHF auf genetische Syndrome wie beispielsweise Trisomie 21, teratogene Exposition wie Alkohol oder Strahlung oder mütterliche Erkrankungen wie beispielsweise Diabetes zurückgeführt werden können, besteht nach wie vor Unklarheit hinsichtlich der Ursachen für die weiteren 70-80% der Fälle (Blue et al., 2012; Pierpont et al., 2018).

Neben den Kindern mit AHF selbst (Amedro et al., 2015; Ernst et al., 2018; Nagdyman et al., 2016), ist auch die gesamte Familie (Goldbeck & Melches, 2005; Ravindran & Rempel, 2011), aber insbesondere die Kernfamilie, bestehend aus Eltern (Ernst et al., 2018; Maya et al., 2020; Wei et al., 2015) und Geschwistern (Bichard et al., 2022; Denniss et al., 2019; Parker et al., 2020; Ravindran & Rempel, 2011) von den Folgen der Erkrankung betroffen. Zeitintensive, sich häufig wiederholende Krankenhausaufenthalte ab der Geburt des Kindes mit dem AHF gehen mit existentiellen Angstgefühlen und Ungewissheit über die Zukunft bei allen Familienmitgliedern einher (Wei et al., 2015; Wray & Maynard, 2005). Zudem haben das lebensbedrohliche Potenzial und die lebenslange Notwendigkeit von Kontrolluntersuchungen bei allen AHF, sowie zusätzlich die Notwendigkeit wiederkehrender Interventionen besonders bei moderaten und komplexen AHF (Lindinger et al., 2010; Sun et al., 2015; Warnes, 2005; Warnes et al., 2001), tiefgreifende Auswirkungen auf die Kinder mit AHF und ihre Familien. So ist die gesellschaftliche Teilhabe der Kernfamilie unter anderem durch den Verlust sozialer Kontakte sowie psychischer, schulischer und beruflicher Schwierigkeiten infolge der Konsequenzen der AHF-Behandlungen eingeschränkt (Azhar et al., 2016; Denniss et al., 2019; Wei et al., 2015).

Die Geschwister von Kindern mit AHF nehmen hierbei im Familienkonstrukt eine besonders vulnerable Position ein, da diese durch die Erkrankung in ähnlichem Maße psychisch belastet sind wie die

Kinder mit dem AHF selbst (Azhar et al., 2016). Sie laufen aufgrund der oben aufgeführten familiären Auswirkungen der AHF jedoch Gefahr, nicht ausreichend Aufmerksamkeit und Unterstützung zu bekommen, wenn sie diese aufgrund der belastenden Situation am meisten benötigen (Naylor & Prescott, 2004).

Auch in der Forschung wurden Geschwister von Kindern mit AHF bisher wenig beachtet (Parker et al., 2020), obwohl sie durch die AHF vielfältige, krankheitsspezifische Belastungen erleben, die sich negativ auf ihre schulischen Leistungen, ihr Verhalten, ihre Gesundheit und ihre Lebensqualität (LQ) auswirken können (Azhar et al., 2016; Bichard et al., 2022; Havermans et al., 2015; Parker et al., 2020). Aus diesem Grund werden sie, so wie auch Kinder von Geschwistern mit anderen chronischen Erkrankungen oder Behinderungen, als Risikogruppe betrachtet, die im Schatten der Erkrankung des Geschwisterkindes aufwächst. Sie werden daher häufig als sogenannte ,unsichtbare Kinder', ,Glaskinder' oder ,Schattenkinder' bezeichnet (Hanvey et al., 2022; Knecht et al., 2022; Naylor & Prescott, 2004).

Aufgrund eines Paradigmenwechsels in der Medizin befassen sich seit den 1960er Jahren zunehmend Publikationen mit dem Konstrukt LQ (Cai et al., 2021). Neben dem rein physiologischen Aspekt medizinischer Behandlungen rückte verstärkt auch die subjektive Wahrnehmung der LQ durch die Betroffenen selbst in den Fokus des Interesses. Aufgrund einer massiven Zunahme psychischer sowie chronischer Erkrankungen und Behinderungen in der Kinder- und Jugendmedizin in den letzten Dekaden, nimmt die gesundheitsbezogene LQ (aus dem Englischen health-related quality of life; HRQoL) als Konstrukt der LQ mit Fokus auf subjektive Gesundheit (Karimi & Brazier, 2016) einen steigenden Stellenwert in der Forschung im Bereich der Kinder- und Jugendmedizin ein (Ellert et al., 2014). Im Hinblick auf die in der vorliegenden Arbeit untersuchte Zielgruppe, ermöglichen die sogenannten KIDSCREEN Fragebögen von Ravens-Sieberer und Kollegen (2014) mit der Bestimmung eines Gesamt-HRQoL-Score und domänenspezifischer Messungen der Bereiche körperliches Wohlbefinden, psychologisches Wohlbefinden, Autonomie und Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie schulisches Umfeld, eine Identifizierung aller Aspekte des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ, die für Jugendliche im Zusammenhang mit chronischen Erkrankungen relevant sind (siehe Kapitel 7.2.3, Überschrift: Erhebung der health-related quality of life).

Die Zielvariablen psychosoziales Wohlbefinden als Teilbereich der LQ, der das psychologische und soziale Wohlbefinden umfasst, sowie die Gesamt-LQ von Kindern mit AHF selbst waren bereits mehrfach Gegenstand von Originalstudien sowie Übersichtsarbeiten (Ardianti et al., 2023; Clancy et al., 2020; Heye et al., 2019; Marshall et al., 2020; Sertçelik et al., 2018; Van Der Mheen et al., 2018). Bisher gab es jedoch keine systematischen Übersichtsartikel hinsichtlich der Ausprägung dieser Konstrukte sowie möglicher soziodemografischer und krankheitsbezogener Variablen, die mit dem psychosozialen Wohlbefinden und der LQ der Geschwister von Kindern mit AHF zusammenhängen könnten, obwohl diese ebenfalls von den negativen Folgen der Erkrankung betroffen sind (Azhar et al., 2016; Denniss et al., 2019; Wei et al., 2015). Auch wurden bisher keine Interventionen ermittelt, die Geschwister von

Kindern mit AHF direkt miteinschließen (Parker et al., 2020). Darüber hinaus blieben bisher die negativen sowie positiven Erfahrungen von Geschwistern von Kindern mit AHF im Zusammenhang mit der Diagnose generell unerforscht und es ist bis heute unklar, ob und welche Unterstützung sich Geschwister von Kindern mit AHF wünschen (Parker et al., 2020; Schamong et al., 2021). Des Weiteren wurde bisher weder die HRQoL der Geschwister von Kindern mit AHF an einer größeren Gruppe untersucht und mit der HRQoL von Geschwistern von Kindern mit einer anderen chronischen Erkrankung verglichen, noch wurden potenzielle Prädiktoren verminderter HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF ermittelt (Parker et al., 2020; Schamong et al., 2021). Ziel der vorliegenden Forschungsarbeit ist daher die Untersuchung der Fragestellungen nach den Auswirkungen von AHF auf die Geschwisterkinder bezüglich der aufgeführten Teilbereiche und Konstrukte der LQ, der Erfahrungen und des Unterstützungsbedarfes. Die Schließung der genannten Forschungslücken stellt die Grundlage der vorliegenden monografischen Dissertation mit Teilpublikationen dar.

Die vorliegende Forschungsarbeit befasst sich nach der vorausgegangenen Einführung in das Thema in diesem Kapitel, im darauffolgenden Kapitel 3 zunächst mit der Definition der für die Arbeit zentralen Begriffe psychosoziales Wohlbefinden, Lebensqualität und gesundheitsbezogene Lebensqualität. In Kapitel 4 wird dann ein Überblick über AHF sowie ihre Auswirkungen auf die betroffenen Familien und die daraus resultierenden, besonderen Belastungen der Geschwister gegeben. Hieraus werden in Kapitel 5 bestehende Forschungslücken und in Kapitel 6, die daraus resultierenden übergeordneten Fragestellungen abgeleitet. Anschließend folgt in Kapitel 7 die Zusammenfassung der einzelnen Forschungsbeiträge. Die Arbeit schließt in Kapitel 8 mit einer Diskussion der übergeordneten Fragestellungen der Dissertation und der Ableitung von Implikationen für zukünftige Forschung, die Interventionsentwicklung und die Praxis sowie einem Gesamtfazit und Ausblick.



### **3 Begriffsklärungen: Psychosoziales Wohlbefinden, Lebensqualität und gesundheitsbezogene Lebensqualität**

Wie bereits in der Einleitung angedeutet, ist der Begriff LQ bis heute in der Forschung uneindeutig definiert (Otto & Ravens-Sieberer, 2020). Zur besseren Verständlichkeit und Einordnung der verwendeten Begriffe, die im Rahmen der vorliegenden Arbeit die Konstrukte der LQ und deren Aspekte beschreiben, erfolgt nun ein kurzer Überblick mit den zugehörigen Begriffsdefinitionen.

Das psychosoziale Wohlbefinden umfasst den Teilbereich der LQ, der das psychologische Wohlbefinden und soziale Eingebundensein einer Person in ihr jeweiliges Umfeld beschreibt (Tsang et al., 2012; Winterbotham & du Preez, 2016). Der Begriff LQ nimmt als kleinsten gemeinsamen Nenner an, dass neben gesundheitlichen und materiellen Aspekten auch das psychosoziale Wohlbefinden die Gesamt-LQ eines Menschen ausmacht (Otto & Ravens-Sieberer, 2020). LQ und HRQoL werden in der Literatur oft synonym verwendet und einige Definitionen unterscheiden zudem nicht klar zwischen beiden Konzepten (Karimi & Brazier, 2016). Zentral für das Konstrukt HRQoL im Kontext dieser Arbeit ist jedoch der Fokus auf subjektives Wohlbefinden junger Menschen in verschiedenen zentralen Bereichen des täglichen Lebens, wie körperliches und psychologisches Wohlbefinden, wahrgenommene Autonomie und soziale Unterstützung, die Beziehung zu den Eltern und Gleichaltrigen sowie schulisches Umfeld, die auch im Zusammenhang mit chronischen Erkrankungen relevant sind (Otto & Ravens-Sieberer, 2020; Ravens-Sieberer et al., 2014).

Zum Verständnis der Auswirkungen von AHF auf die zuvor definierten Konstrukte der LQ sowie die Erfahrungen und den möglichen Unterstützungsbedarf der Geschwister, wird im folgenden Kapitel 4 ein Überblick über AHF, ihre Definitionen und Kennzahlen, mögliche Ursachen, Behandlungen und Prognosen, sowie ihre Auswirkungen auf die betroffenen Familien und die daraus resultierenden, besonderen Belastungen der Geschwister gegeben.

#### 4 Angeborene Herzfehler

AHF sind Fehlbildungen des Herzens und der großen Gefäße, die je nach Komplexität zu einer mehr oder weniger ausgeprägten Funktionsbeeinträchtigung führen (Casey, 2016; Schwedler et al., 2011; Van Der Linde et al., 2011). Ihre Bandbreite ist enorm vielfältig und die AHF unterscheiden sich stark hinsichtlich ihrer Anatomie, ihrer Behandlung und ihrer Prognose (Schwedler et al., 2011; Sun et al., 2015). Zu den allgemeinen Symptomen gehören unter anderem Schmerzen und ein Engegefühl in der Brust, übermäßiges Schwitzen, geringe körperliche Belastbarkeit, Kurzatmigkeit, erhöhte Herzfrequenz, vermehrte Müdigkeit, schnelle Erschöpfung, Trink- und Fütterungsschwierigkeiten, Gedeihstörung, Blaufärbung der Haut durch Sauerstoffmangel sowie daraus resultierende Wassereinlagerungen und Trommelschlägerfinger, die an den Fingerspitzen sichtbare Verdickungen aufweisen (Sun et al., 2015; Vanisree & Singaraju, 2011). Darüber hinaus kann es zu Herzrhythmusstörungen, Ohnmacht und zu einer Vergrößerung bzw. Schwellung der Leber und der Milz kommen (Sun et al., 2015). Auch neigen Kinder mit AHF zu wiederkehrenden, schwer verlaufenden Atemwegsinfektionen, die wiederholte Krankenhausaufenthalte zur Folge haben können (Granbom et al., 2016; Healy et al., 2012). Das Risiko für eine Endokarditis, eine lebensgefährliche bakterielle Besiedlung der Herzinnenhaut, ist ebenfalls dauerhaft erhöht, weshalb besonders bei komplexeren AHF lebenslang prophylaktische Maßnahmen eingehalten werden müssen (Cahill et al., 2019). Zudem kann sich wie bei allen chronischen Erkrankungen eine Wachstumsverzögerung zeigen (Göpel et al., 2023; Sun et al., 2015).

Wie bereits in der Einleitung angeführt, stellen AHF mit einer Prävalenz von etwa 1% (Lindinger et al., 2010, 2011; Liu et al., 2019; Schwedler et al., 2011; Van Der Linde et al., 2011) eine weltweit gesundheitsökonomisch hochrelevante Erkrankungsform dar (Su et al., 2022), deren globale Prävalenz zwischen 1970 und 2017 alle fünf Jahre um etwa 10% gestiegen ist (Liu et al., 2019). Da bis 1960 selbst für simple AHF noch keine adäquate Behandlung zur Verfügung stand, war die Sterblichkeit bis zum Erreichen des Erwachsenenalters mit 70% sehr hoch, konnte aber durch den medizinischen Fortschritt so weit gesenkt werden, dass heutzutage bis zu 95% der Neugeborenen mit AHF das Erwachsenenalter erreichen (Neidenbach et al., 2017; Yamamoto & Schindler, 2016). Einer weiteren Studie zufolge hat auch die Prävalenz komplexer und somit besonders behandlungsintensiver AHF im letzten Jahrzehnt signifikant zugenommen (Pfitzer et al., 2017). Dies ist auf umfassende Durchbrüche und Innovationen in Diagnostik und Behandlung komplexerer AHF in den letzten Jahrzehnten zurückzuführen. Hier ist beispielsweise die Möglichkeit des Klappenersatzes der rechtsseitigen Herzklappen mittels Herzkatheter zu erwähnen (Gales et al., 2018), welche zuvor nur im Rahmen einer Operation ersetzt werden konnten, oder die chirurgischen Möglichkeiten der Behandlung selbst komplexester AHF, mit nur einer funktionsfähigen Herzkammer (Rai et al., 2019), die zuvor zum sicheren Tod der Kinder geführt hätte (Gobergs et al., 2016). Insgesamt werden jährlich weltweit etwa 1.35 Millionen Neugeborene mit AHF geboren (Van Der Linde et al., 2011). Aktuellere Schätzungen der absoluten Anzahl von Neugeborenen mit AHF

pro Jahr stehen aktuell nicht zur Verfügung. Im Jahre 2017 verursachten AHF weltweit ca. eine Viertelmillion Todesfälle und stellten mit 13.3 Millionen Betroffenen im Jahr 2019 weltweit die häufigsten angeborenen Fehlbildungen dar. Sie machen somit einen deutlichen Anteil am Global Burden of Disease aus (Zimmerman et al., 2020), einem internationalen Projekt zur Quantifizierung von Erkrankungen, Behinderungen, Risikofaktoren und Todesfällen nach Regionen und Bevölkerungsgruppen, deren Ergebnisse politische Entscheidungsträger zur Prioritätensetzung nutzen (Murray et al., 2020).

In Deutschland werden jährlich ca. 6.000 Kinder mit einem AHF geboren (März, 2021; Yamamoto & Schindler, 2016). Schätzungen zufolge leben aktuell bis zu 300.000 Erwachsene mit AHF in Deutschland (Ewert & Eicken, 2020) und die Zahl der zu betreuenden Betroffenen soll weiter steigen (Ewert & Eicken, 2020; Schmaltz, 2014). Entsprechende Schätzungen für Europa gehen von über vier Millionen Menschen mit AHF aus, von denen über 2,3 Millionen Erwachsene sind (Schmaltz & Bauer, 2013).

#### **4.1 Mögliche Ursachen angeborener Herzfehler**

Die embryonale Entwicklung des Herzens ist hochkomplex und fehleranfällig (Kloesel et al., 2016). Mehrere kritische und zeitsensible Entwicklungsschritte müssen in der richtigen Reihenfolge ablaufen, um strukturelle und funktionelle Anomalien zu vermeiden (Kloesel et al., 2016). Selbst minimale Abweichungen können daher zum Auftreten von AHF führen (Gittenberger-de Groot et al., 2013). Bereits ab der dritten Woche der Embryonalentwicklung entwickelt sich ein schlauchförmiges Herz und ab der vierten Woche können dann schon Kontraktionen nachgewiesen werden (Abdulla et al., 2004). In den folgenden Wochen verformen, falten und drehen sich die einzelnen Strukturen des Herzens dann immer wieder, bis etwa in der siebten Woche die Entwicklung des Herzens abgeschlossen ist (Abdulla et al., 2004; Gittenberger-de Groot et al., 2013; Mathew & Bordoni, 2022). Das Herz ist somit das erste funktionierende Organsystem des Embryos und je nach Art und Zeitpunkt der Fehlentwicklung entstehen unterschiedliche AHF (Mathew & Bordoni, 2022). So führt beispielsweise eine Verengung der Aorta im ersten Drittel der Schwangerschaft häufig zu einem hypoplastischen Linksherzsyndrom (HLHS), einem der komplexesten AHF (Axt-Fliedner et al., 2006), dessen gravierende Konsequenzen im Kapitel 4.6 detailliert erläutert werden.

Epidemiologische Studien deuten darauf hin, dass für etwa 20-30% der AHF eine genetische oder umweltbedingte Ursache identifiziert werden kann (Blue et al., 2012; Pierpont et al., 2018). Hierbei werden einzelne Gene, aber auch grobe chromosomale Anomalien sowie Syndrome wie Trisomie 21, DiGeorge-, Noonan- oder Ullrich-Turner-Syndrom für AHF verantwortlich gemacht (Pierpont et al., 2018). Mögliche umweltbedingte Ursachen für AHF sind beispielsweise exzessiver Alkoholkonsum, Einnahme von bestimmten, fetotoxischen Medikamenten, sowie mütterlicher Diabetes und Virusinfektionen wie Röteln oder Masern, im ersten Trimester der Schwangerschaft (Blue et al., 2012; Caputo et al., 2016; Pierpont et al., 2018; Sun et al., 2015). Der ungeklärte Rest von 70-80% aller Fälle von AHF ist vermutlich multifaktoriell bedingt und somit höchstwahrscheinlich eine Kombination aus den oben

genannten genetischen Abweichungen und Umweltfaktoren (Caputo et al., 2016; Gittenberger-de Groot et al., 2013; Pierpont et al., 2018; Sun et al., 2015).

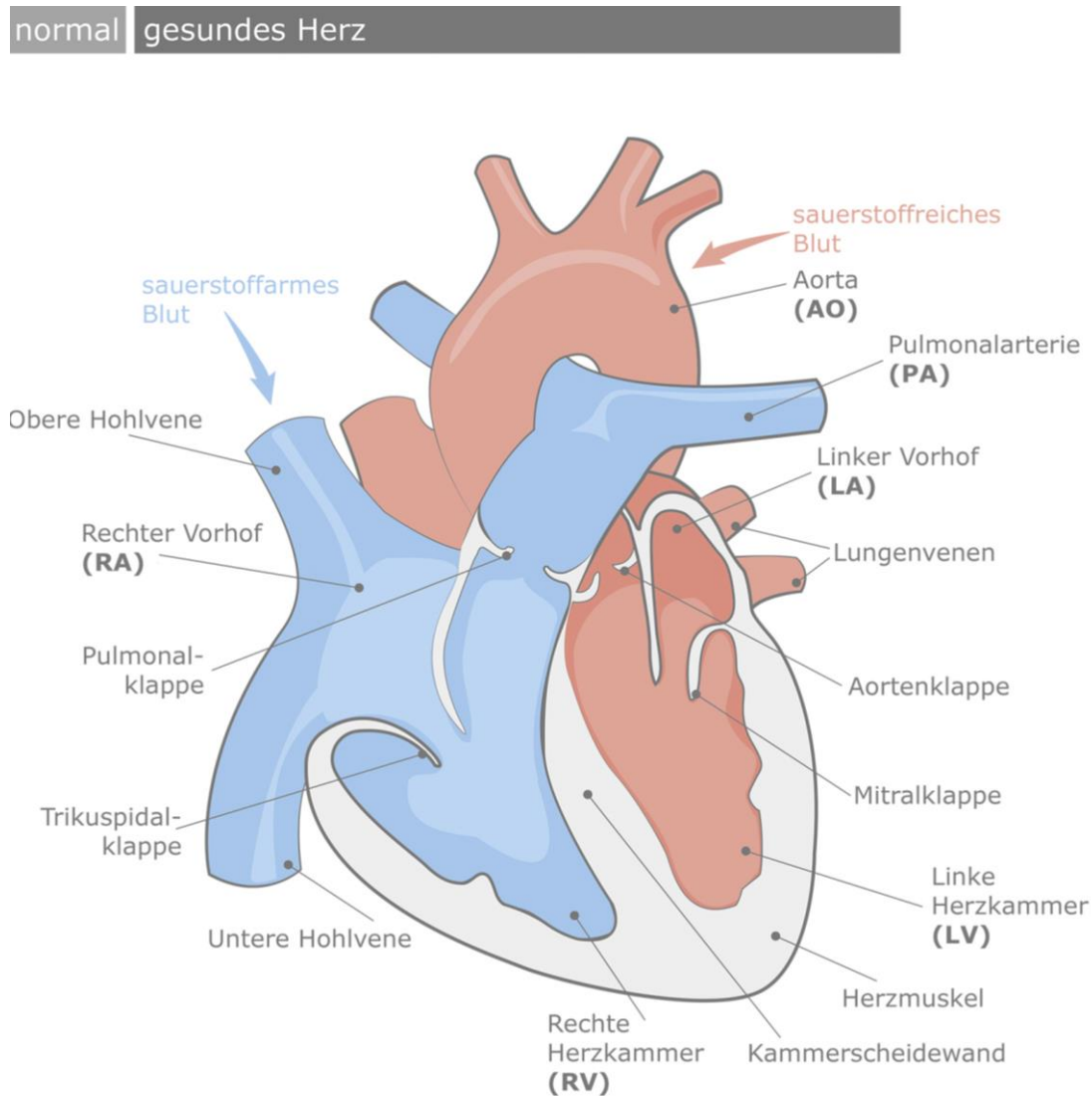
#### **4.2 Die Anatomie des gesunden Herzens zum Vergleich**

Zum Verständnis der Auswirkungen der verschiedenen AHF ist ein Verständnis der Funktionsweise des gesunden Herzens eine wichtige Voraussetzung. Das Herz ist an sich in zwei Hälften mit eigenständigen Kreisläufen unterteilt, die jeweils aus einer Herzkammer (Ventrikel) und einem Vorhof (Atrium) aufgebaut sind. Getrennt sind die Hälften durch die Herzscheidewand (Septum), welche aus der Vorhofscheidewand (Septum interatriale) und der Kammerscheidewand (Ventrikelseptum) bestehen (Tulloh & Green, 2016). Aufgrund der Herzklappen, die sich zwischen den Vorhöfen und Herzkammern und zwischen den Herzkammern und anliegenden Gefäßen befinden und wie Verschlussventile funktionieren, kann das Blut sich nur in eine Richtung bewegen und ein Rückfluss des Blutes wird verhindert (Buckberg et al., 2018). Die Arterien transportieren das Blut zu den Organen und die Venen leiten es zurück. Der linke Ventrikel ist für den Körperkreislauf zuständig. Er pumpt aus der Lunge kommendes, mit Sauerstoff angereichertes Blut über die Körperschlagader (Aorta) in den Körperkreislauf, während der rechte Ventrikel den Körperkreislauf bedient und sauerstoffarmes Blut, welches im Körper verbraucht wurde, über die Lungenarterien (Pulmonalarterien) in die Lunge zurücktransportiert. Dort wird es dann wieder mit Sauerstoff beladen und zum linken Ventrikel zurücktransportiert und der Kreislauf beginnt erneut (Christ, 2022; Tulloh & Green, 2016).

Bei Neugeborenen besteht zudem eine embryonale Querverbindung in Form des Ductus arteriosus, welche sich zwischen der Aorta und den Pulmonalarterien als Struktur der rechten Herzkammer befindet, die auch nach der Geburt eine gewisse Zeit weiterbesteht (Herberg, 2020). Da der Fötus während der Schwangerschaft über die Nabelschnur und die Plazenta mit Sauerstoff versorgt wird, ist der eigenständige Lungenkreislauf noch nicht entfaltet. Nach der Geburt wird nun die Verbindung zwischen den beiden Kreisläufen innerhalb der ersten Lebenstage getrennt, indem sich neben dem Ductus arteriosus auch das Foramen ovale, eine weitere embryonale Querverbindung, in Form einer Öffnung zwischen linker und rechter Herzkammer, von selbst verschließt (Herberg, 2020; Tulloh & Green, 2016). Abbildung 1 verbildlicht die Anatomie des gesunden Herzens, nachdem sich der eigenständige Lungenkreislauf bereits entfaltet hat.

**Abbildung 1**

*Die Anatomie des gesunden Herzens*



Quelle. Herzkinder Österreich (2023). Copyright von Herzkinder Österreich 2023.

**4.3 Klassifikation und Häufigkeiten verschiedener angeborener Herzfehler**

Zur Klassifikation von AHF gibt es unterschiedliche Ansätze. So kann zum Beispiel zwischen simplen und moderaten AHF, die eine sogenannte ‚Zweikammer-Korrektur‘ ermöglichen (Davies et al., 2023), und komplexen AHF mit nur einer funktionsfähigen Herzkammer (Einkammerherzen), die lediglich palliativ behandelt werden können, unterschieden werden (Rao, 2021). Eine differenzierte Möglichkeit der Einteilung bietet die Kategorisierung nach Schweregrad in die drei Schweregrade simpel, moderat und komplex, wie in der Taxonomie von Warnes und Kollegen (2001). In der vorliegenden Arbeit wird dieser Einteilung gefolgt, da relevante Unterschiede in Behandlung und Prognose zwischen simplen, moderaten und komplexen AHF unterschiedliche Auswirkungen auf die Zielvariablen der inkludierten Forschungsbeiträge vermuten lassen. Insbesondere, da eine ‚Zweikammer-Korrektur‘ zwar eine physiologisch ‚normale‘ Kreislaufsituation ermöglicht, jedoch keine ursächliche Heilung des AHF bedeutet,

wenn zur Herbeiführung der Korrektur – wie bei moderaten AHF häufig der Fall – künstliche Materialien wie Herzklappen eingesetzt werden müssen, die in den meisten Fällen mit wiederkehrenden Eingriffen verbunden sind (Warnes, 2005). Die zusammengefasste Einteilung der jeweiligen AHF ist Tabelle 3 zu entnehmen.

**Tabelle 3**

*Einteilung in simple, moderate und komplexe AHF*

AHF	Bezeichnung
Simple AHF	Isolierte angeborene Erkrankung der Aorten- oder Mitralklappe
	Isoliertes offenes Foramen ovale oder kleiner Vorhofseptumdefekt
	Isolierter kleiner Ventrikelseptumdefekt
	Leichte Verengung der Pulmonalarterien
	Interventionell verschlossener Ductus arteriosus
	Reparierter Vorhofseptumdefekt ohne Restbefund
	Reparierter Ventrikelseptumdefekt ohne Restbefund
Moderate AHF	Aorto-linksventrikuläre Fisteln (unphysiologische Verbindungen von Aorta und linkem Ventrikel)
	Anomaler Abfluss der Pulmonalvenen, teilweise oder vollständig
	Atrioventrikuläre Kanaldefekte, teilweise oder vollständig
	Jegliche Verengungen der Aorta
	Ebstein Anomalie (Fehlbildung der Trikuspidalklappe)
	Fallot'sche Tetralogie (Kombination von vier Fehlbildungen des Herzens)
	Mitralklappenerkrankung
	Verengung des rechtsventrikulären Ausflusstrakts
	Mittelschwere bis schwere Verengung der Pulmonalarterien
	Überreiten der Trikuspidalklappe oder Mitralklappe über das Ventrikelseptum
	Ausgeprägter Vorhofseptumdefekt
Ventrikelseptumdefekt mit fehlender/n Klappe/n	
Komplexe AHF	Totaler AV-Kanal (Kombination von Vorhofseptumdefekt, Ventrikelseptumdefekt sowie teilweise Fehlbildung der Mitralklappe und Trikuspidalklappe)
	Künstliche Herzklappen/künstliche Kanäle
	Eisenmenger-Syndrom (Irreversible Erhöhung des Gefäßwiderstandes im Lungenkreislauf)
	Alle Einkammerherzen, z. B. Hypoplastisches Linksherzsyndrom
	Verschluss oder Nichtanlage mindestens einer Herzklappe
	Alle Ventrikel mit doppeltem Auslass
	Pulmonal gefäßverengende Erkrankungen
	Transposition der großen Arterien (Vertauschung von Aorta und Pulmonalarterienstamm)
Truncus arteriosus (Verbindung zwischen Aorta und Stamm der Pulmonalarterien)	

*Abkürzung.* AHF = angeborene Herzfehler. *Quelle.* Eigene Darstellung, modifiziert nach Warnes und Kollegen (2001; Tabelle 4-6).

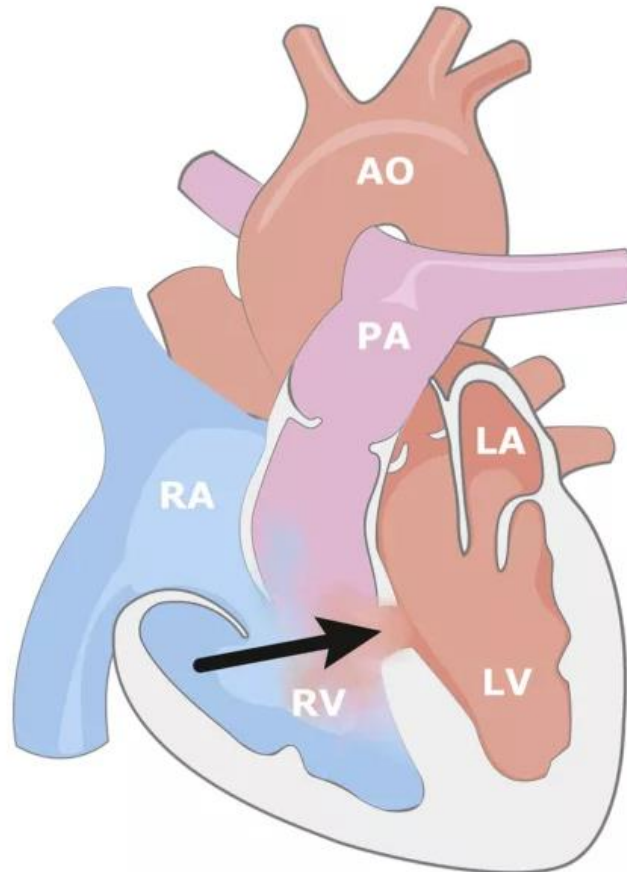
Der mit Abstand häufigste AHF ist der Ventrikelseptumdefekt (VSD), der fast ein Fünftel aller AHF in Deutschland ausmacht. Der häufigste moderate AHF, mit einem Anteil von fast einem Zehntel aller AHF, ist die Fallot'sche Tetralogie. Bei den besonders komplexen Einkammerherzen, die ebenfalls etwa ein Zehntel aller AHF ausmachen, steht das hypoplastische Linksherzsyndrom (HLHS) an erster Stelle (Pfitzer et al., 2017). Zudem sind weibliche Neugeborene mit ca. 47% etwas seltener von AHF betroffen als männliche. In Bezug auf das Geschlecht war die Prävalenz der simplen AHF jedoch bei weiblichen Neugeborenen höher, während komplexe AHF bei männlichen Neugeborenen häufiger auftraten

(Pfitzer et al., 2017). Wie in der Einleitung bereits angedeutet, sind insbesondere die etwa 40% der Betroffenen mit moderaten oder komplexen AHF lebenslang chronisch krank (Bauer & Lange, 2005; Lindinger et al., 2011; Liu et al., 2019; Niggemeyer, 2016), was dauerhafte Belastungen und Einschränkungen der LQ für die Betroffenen selbst (Amedro et al., 2015; Ernst et al., 2018; Nagdyman et al., 2016), ihre Eltern (Ernst et al., 2018; Maya et al., 2020; Wei et al., 2015), aber auch ihre Geschwister mit sich bringt (Bichard et al., 2022; Denniss et al., 2019; Parker et al., 2020; Ravindran & Rempel, 2011).

Nachfolgend werden Anatomie, Symptome, Behandlung und Prognose jeweils eines simplen, moderaten und komplexen AHF zum Verständnis der unterschiedlichen potentiellen Konsequenzen der verschiedenen Komplexitätsstufen auf die Zielvariablen der inkludierten Forschungsbeiträge beispielhaft erklärt.

#### **4.4 Der Ventrikelseptumdefekt: Anatomie, Symptome, Behandlung und Prognose eines simplen angeborenen Herzfehlers**

Beim Ventrikelseptumdefekt (VSD) handelt es sich um ein Loch in der Scheidewand (Septum) zwischen dem rechten und dem linken Ventrikel. Mit einem Anteil von über 19% aller AHF ist er der häufigste AHF in Deutschland (Pfitzer et al., 2017). Starkes Schwitzen, Kurzatmigkeit, erhöhte Herzfrequenz, vermehrte Müdigkeit und schnelle Erschöpfung, Trinkschwierigkeiten sowie Wachstumsstörungen gehören zu den Symptomen dieses AHF (Penny & Vick, 2011; Spicer et al., 2014). Da der Druck im linken Ventrikel bis zu fünfmal stärker ist als der Druck im rechten Ventrikel (Magder, 2007), wird sauerstoffreiches Blut durch das Loch in den rechten Ventrikel gedrückt, der eigentlich das sauerstoffarme Blut zur Lunge transportieren soll (Mavroudis et al., 2023). Dieser Übertritt des sauerstoffreichen Blutes, welches sich im Lungenkreislauf staut, belastet das Lungengefäßsystem stark (Mavroudis et al., 2023). Eine Stauung des vermehrten Blutflusses in der Lunge führt zu Flüssigkeitseinsparungen im Gewebe und im akuten Fall sogar zu einem Lungenödem (Buczinski et al., 2006; Li et al., 2019). Zusätzlich kann es durch die veränderte Fließeigenschaft und -richtung des Blutstromes zu Schlaganfällen und Embolien kommen (Attar et al., 2016; Soufflet et al., 2010). Bleibt ein großer VSD über längere Zeit unbehandelt, kann sich als Kompensationsreaktion des Körpers ein irreversibler Lungenhochdruck entwickeln (Penny & Vick, 2011). Aufgrund der veränderten Druckverhältnisse fließt dann sauerstoffarmes Blut in die entgegengesetzte Richtung durch das Loch in der Herzscheidewand und es kommt zu unbehandelbarem Sauerstoffmangel (Diller et al., 2006). Bei dieser, nach ihrem Erstbeschreiber benannten Eisenmenger-Reaktion, bleibt als einzige therapeutische Option eine Herz-Lungen-Transplantation (Beghetti & Galiè, 2009). Abbildung 2 verbildlicht die Anatomie des VSD.

**Abbildung 2***Die Anatomie des VSD***VSD** Ventrikelseptumdefekt

*Abkürzungen.* AO = Aorta, LA = linker Vorhof, LV = linke Herzkammer, PA = Pulmonalarterie, RA = rechter Vorhof, RV = rechte Herzkammer. *Anmerkung.* Der schwarze Pfeil deutet auf die bestehende Fehlbildung. *Quelle.* Von Herzkinder Österreich (2023). Copyright von Herzkinder Österreich 2023

Etwa 40% aller VSDs können sich im ersten Lebensjahr spontan von selbst verschließen (Goldberg, 2015; Zhang et al., 2015) und bis zu 30% der Defekte werden in diesem Zeitraum so klein, dass kein Eingriff mehr erforderlich ist (Rao & Harris, 2018). Größere Defekte hingegen müssen in der Regel chirurgisch durch eine Naht oder das Einbringen eines Flickens aus Herzbeutelgewebe oder Goretex-Material verschlossen werden (Rao & Harris, 2018; Schipper et al., 2017). Zur Prävention der oben beschriebenen, irreversiblen Eisenmenger-Reaktion (Beghetti & Galiè, 2009) sollte der VSD-Verschluss bereits in den ersten anderthalb Lebensjahren erfolgen (Rao & Harris, 2018). Die Operation wird häufig mithilfe einer Herz-Lungen-Maschine über eine Eröffnung des Brustbeins durchgeführt (Adilbekova et al., 2022; Schipper et al., 2017). Es besteht ein geringes Risiko von unter 1%, bei oder infolge der Operation zu versterben (Schipper et al., 2017; Scully et al., 2010), oder eine Unterbrechung der elektrischen Erregungsleitung der Herzmuskulatur zu erleiden und infolgedessen dauerhaft auf einen



Herzschrittmacher angewiesen zu sein (Scully et al., 2010). In seltenen Fällen ist eine einzige Operation nicht ausreichend, um den VSD endgültig zu verschließen, da aufgrund der ungünstigen anatomischen Lage sogenannte ‚Rest-Defekte‘ belassen werden müssen, die dann im höheren Alter und bei ausreichendem Wachstum des Herzens durch eine weitere Operation oder mithilfe eines interventionellen Herzkatheters verschlossen werden müssen (Scully et al., 2010). Ein VSD-Verschluss ist jedoch erst ab einem Körpergewicht von ca. acht Kilogramm und nur bei günstiger anatomischer Lage mittels eines Herzkatheters möglich (Carminati et al., 2007). Sowohl vor als auch an einem bestimmten, von den Symptomen abhängigen Zeitraum nach der Korrektur, müssen die Kinder auch medikamentös behandelt werden (Mavroudis et al., 2023). Einige Monate nach der Operation sollte zudem eine Endokarditis-Prophylaxe eingehalten werden, da Nahtmaterial und eingebrachte Goretex-Flicken eine Angriffsfläche für eine bakterielle Besiedlung darstellen, die mit einer hohen Morbidität und Mortalität einhergeht (Sendi et al., 2021; Shah et al., 2020). Aus diesem Grund müssen die Kinder in diesem Zeitraum vor und während zahnärztlicher und chirurgischer Eingriffe sowie bei Anzeichen einer bakteriellen Infektionskrankheit, wie beispielsweise Fieber, schnellstmöglich eine prophylaktische Antibiose erhalten (Cahill et al., 2019). Nach einigen Monaten haben sich die verwendeten Fremdmaterialien jedoch in der Regel aufgelöst oder wurden von Herzbeutelgewebe überwachsen und bieten somit keine Angriffsfläche mehr für bakterielle Infektionen (El-Sisi et al., 2016; Sendi et al., 2021).

Insgesamt ist der chirurgische Verschluss eines isolierten VSD eine sichere und wirksame Therapie. Über 99% der Kinder mit VSD blieben im Langzeitverlauf asymptomatisch (Dakkak & Oliver, 2017; Scully et al., 2010) und haben eine normale Lebenserwartung (Rao & Harris, 2018). Nach erfolgreichem VSD-Verschluss gilt der AHF demzufolge als vollständig korrigiert (Aydemir et al., 2013; Schipper et al., 2017). Im Durchschnitt entwickeln sich die Kinder postoperativ altersentsprechend und holen ein eventuelles Gewichtsdefizit schnell auf (Correia Martins et al., 2016). Lebenslange Kontrolluntersuchungen sind dennoch notwendig, da entstandene Narbengewebe beim Verschluss des VSD im Langzeitverlauf ein höheres Risiko für eine Endokarditis, Herzrhythmusstörungen und Herzversagen mit sich bringen (Goldberg, 2015; Karonis et al., 2016).

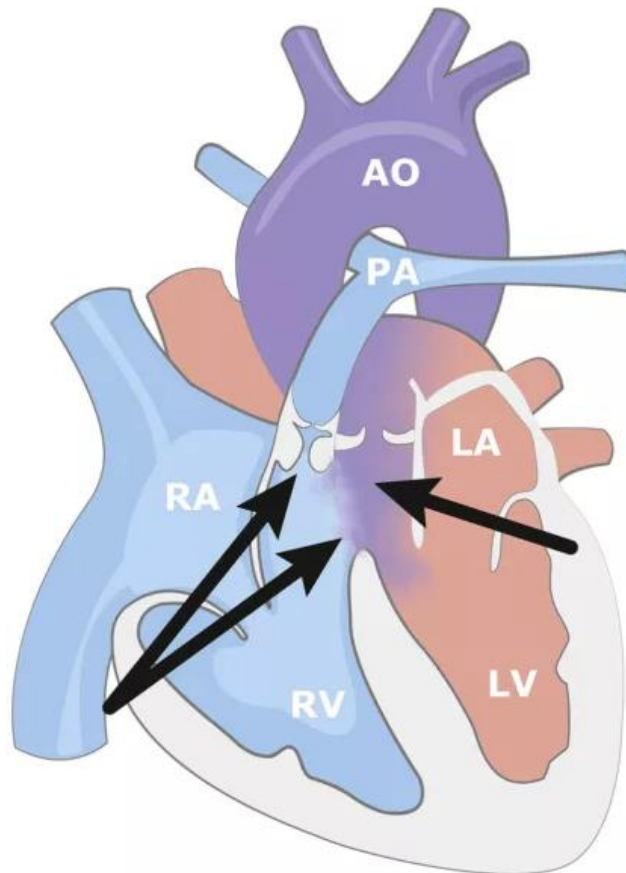
#### **4.5 Die Fallot’sche Tetralogie: Anatomie, Symptome, Behandlung und Prognose eines moderaten angeborenen Herzfehlers**

Die Fallot’sche Tetralogie macht in Deutschland über 9% aller AHF aus (Pfitzer et al., 2017) und besteht aus vier verschiedenen Fehlbildungen. Bei der ersten handelt es sich um eine Pulmonalstenose bzw. Pulmonalatresie, d. h. eine Verengung bzw. einen Verschluss der Ausflussbahn des rechten Ventrikels zu den Pulmonalarterien, die häufig auch die zugehörige Herzklappe, die Pulmonalklappe, betrifft. Die zweite Fehlbildung ist ein VSD (siehe vorheriger Abschnitt), die dritte eine über die Herzscheidewand reitende Aorta und die vierte eine aus den drei vorherigen Fehlbildungen resultierende,

kompensatorische Vergrößerung des rechten Ventrikels, das Blut mithilfe einer erhöhten Pumpleistung durch die Engstelle und den bestehenden VSD drücken muss (Anderson & Jacobs, 2008; Bailliard & Anderson, 2009; Starr, 2010; Wilson et al., 2019). Der Grad der Pulmonalstenose, die bis zu einem völligen Verschluss des Durchflusses reichen kann, und die daraus resultierenden Drücke im rechten und linken Ventrikel bestimmen maßgeblich die Ausprägung der Symptomatik und den Behandlungsaufwand (Wilson et al., 2019). Eine starke Ausprägung der Verengung bzw. ein vollständiger Verschluss der Pulmonalklappe führt demzufolge zu einem starken Sauerstoffmangel, begleitet von Atemnot bereits im Neugeborenenalter (van der Ven et al., 2019; Wilson et al., 2019). In der Folge sind ohne eine adäquate Intervention sogenannte ,hypoxämische Anfälle‘ möglich, die vor allem beim Aufwachen und nach körperlicher oder psychischer Anstrengung wie Trinken, Schreien, oder Unruhe auftreten. Sie sind gekennzeichnet durch Blässe und überschnelle Atmung und können zum Bewusstseinsverlust, zu Hirnschädigungen und zum Herzversagen beim betroffenen Säugling führen (Blum et al., 2016). Abbildung 3 verbildlicht die Anatomie der Fallot’schen Tetralogie.

**Abbildung 3***Die Anatomie der Fallot'schen Tetralogie*

TOF | Fallot'sche Tetralogie



*Abkürzungen.* AO = Aorta, LA = linker Vorhof, LV = linke Herzkammer, PA = Pulmonalarterie, RA = rechter Vorhof, RV = rechte Herzkammer. *Anmerkung.* Die schwarzen Pfeile deuten auf die bestehenden Fehlbildungen. *Quelle.* Von Herzkinder Österreich (2023). Copyright von Herzkinder Österreich 2023.

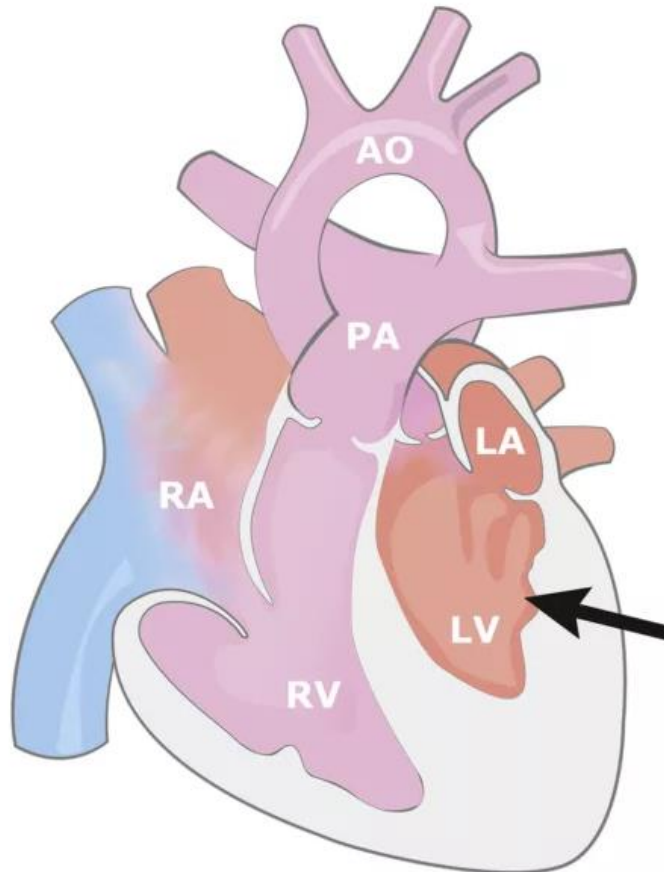
Die einzig mögliche Therapie der Fallot'schen Tetralogie besteht in einer chirurgischen Korrektur, mit dem Ziel der Herstellung einer Herzanatomie, die funktional der des gesunden Herzens gleicht. Wie bereits bei der VSD-Korrektur beschrieben, wird der VSD durch eine Naht oder einen Flicken verschlossen. Zusätzlich wird die Verengung bzw. der Verschluss der Pulmonalklappe chirurgisch behoben (van der Ven et al., 2019). In der Folge fließt ausschließlich sauerstoffreiches Blut aus dem linken Ventrikel über die Aorta in den Körperkreislauf und die Blutzirkulation normalisiert sich. Meist erfolgt die Korrektur-Operation in einem Schritt etwa zwischen dem dritten und sechsten Lebensmonat (Bakhtiary et al., 2013; O'Brien & Marshall, 2014; Shen et al., 2016), da jüngere Säuglinge ein erhöhtes Risiko aufweisen, bei einem Eingriff mit Einsatz der Herz-Lungen-Maschine zu versterben (Kang et al., 2004). Ob dieses Vorgehen möglich ist, hängt jedoch von der Ausprägung der verschiedenen Fehlbildungen ab. Um bis zur eigentlichen Korrektur-Operation zu überleben, ist es bei schwerer Ausprägung

nötig, zuvor entweder im Rahmen eines Herzkathetereingriffs mithilfe eines Röhrchens aus Metallgitter (Stent) den Ductus arteriosus offenzuhalten (Alwi, 2008), oder operativ ein Kunststoffröhrchen zwischen Aorta und Pulmonalarterien (Aorto-pulmonaler Shunt) zu implantieren (Bentham et al., 2018). Durch die so aufrechterhaltene oder neu geschaffene Querverbindung zwischen Aorta und Pulmonalarterien kann eine ausreichende Sauerstoffversorgung bis zur endgültigen Korrektur-Operation sichergestellt werden (van der Ven et al., 2019). Dieser Behandlungsschritt gilt im Vergleich zur finalen Korrektur zwar als leichter Eingriff und wird in der Regel ohne Einsatz der Herz-Lungen-Maschine durchgeführt, dennoch versterben insgesamt bis zu 7% der Neugeborenen infolge des Eingriffs (Petrucci et al., 2011). Einen weiteren Risikofaktor für wiederkehrende Eingriffe stellt die Notwendigkeit einer künstlichen Pulmonalklappe dar, sofern die Verengung bzw. der Verschluss der Ausflussbahn des rechten Ventrikels mithilfe eines Flickens nicht ausreichend erweitert werden kann. Ist dies der Fall, muss die Klappe in der Regel im Laufe des Lebens mehrfach ausgetauscht werden, da sie nicht mitwächst, aber verkalkt und somit zunehmend an Funktion verliert (Kuang et al., 2020). Schon ab dem Schulalter ist dann ein Austausch der Pulmonalklappe mittels eines Herzkathetereingriffs möglich (Martin et al., 2018). Demzufolge kann sich das Behandlungsspektrum von einer einzigen Korrektur-Operation im Säuglingsalter bis hin zu mehreren Operationen sowie anschließenden Herzkathetereingriffen erstrecken (van der Ven et al., 2019). Präoperativ können je nach Ausprägung der Symptomatik Medikamente zur Vorbeugung und Behandlung der oben genannten ‚hypoxämischen Anfälle‘ notwendig werden (Fanous & Mogyorósy, 2017; Pinto & Fine-Goulden, 2022). Zusätzlich muss aufgrund des substantiell erhöhten Risikos der Betroffenen, an einer Endokarditis zu erkranken, welches insbesondere für diejenigen mit Pulmonalklappen-Ersatz gilt, lebenslang eine Endokarditis-Prophylaxe eingehalten werden (Havers-Borgersen et al., 2021).

In der Regel kommt es nach der Korrektur-Operation zu einem komplikationslosen Verlauf. Regelmäßige, lebenslange Kontrolluntersuchungen sind jedoch unverzichtbar, um möglicherweise verbliebene, oder neu aufgetretene geringe Pulmonalstenosen oder Undichtigkeiten an der Pulmonalklappe frühzeitig zu entdecken und zu behandeln (O’Brien & Marshall, 2014). Auch auf durch postoperative Vernarbungen entstandene Herzrhythmusstörungen, eine gefürchtete Komplikation vieler AHF, wird bei diesen Kontrolluntersuchungen besonders geachtet (O’Brien & Marshall, 2014). Es ist zu erwarten, dass sich heute operierte Kinder altersentsprechend entwickeln (O’Brien & Marshall, 2014). Jedoch ist der Verlauf der Fallot’schen Tetralogie wie bei den meisten moderaten und komplexen AHF höchst variabel und auch nach einer erfolgreichen Korrektur-Operation ist das Herz nicht völlig gesund. Der rechtsventrikuläre Ausflusstrakt bleibt oft bis zu einem gewissen Grad eingeschränkt, und die korrigierte oder ersetzte Pulmonalklappe erreicht nicht die Funktion einer gesunden Pulmonalklappe (O’Brien & Marshall, 2014). Zudem können jederzeit eine Endokarditis oder risikoreiche Herzrhythmusstörungen auftreten, die oftmals belastende Behandlungen erfordern (van der Ven et al., 2019).

#### **4.6 Das Hypoplastische Linksherzsyndrom: Anatomie, Symptome, Behandlung und Prognose eines komplexen angeborenen Herzfehlers**

Beim Hypoplastischen Linksherzsyndrom (HLHS) handelt es sich um eine der komplexesten Formen der Einkammerherzen, die fast 10% aller AHF in Deutschland ausmachen (Pfitzer et al., 2017) Mit einem Anteil von insgesamt ca. 1-2% aller AHF in Deutschland, stellt es die größte Gruppe unter den Einkammerherzen dar (Lindinger et al., 2010). Aktuellere Schätzungen zur exakten Prävalenz von HLHS stehen zurzeit jedoch nicht zur Verfügung. Das Leitsymptom dieser Kombination von Fehlbildungen ist die Unterentwicklung (Hypoplasie) der Strukturen des linken Ventrikels (Gobergs et al., 2016). Kinder mit HLHS leiden unter Sauerstoffmangel, einer gesteigerten Atemfrequenz, Trink- und Gedeihsschwierigkeiten, Wachstumsstörungen sowie niedrigem Blutdruck, der Überlastung des rechten Ventrikels und einer erhöhten Neigung zu Herzversagen (Gobergs et al., 2016; Mahle et al., 2018). Die Hypoplasie des linken Ventrikels ist auf eine im Rahmen der embryonalen Entwicklung des Herzens entstandene Verengung (Stenose), bzw. einen vollständigen Verschluss (Atresie), des Einlasstraktes zum linken Ventrikel in Form der Mitralklappe oder des Auslasstraktes des linken Ventrikels in Form der Aortenklappe zurückzuführen, wobei der mangelnde oder fehlende Blutfluss durch den linken Ventrikel dazu führt, dass dieser pränatal nicht ausreichend mitwächst (Gobergs et al., 2016). Fast immer ist bei diesem Syndrom die Aorta ebenfalls unterentwickelt, da diese anatomisch zur Struktur des linken Ventrikels gehört (Gobergs et al., 2016). Im Lungenkreislauf kann es dann wiederum, durch die Überlastung der verbleibenden rechten Herzkammer, zu einer vermehrten Schleimproduktion in der Lunge kommen, was zu Lungenentzündungen und irreversiblen Lungenhochdruck führen kann (Lomba et al., 2022). Außerdem können Organe wie Gehirn, Leber, Darm und Niere durch eine partielle Unterversorgung mit Sauerstoff geschädigt werden (Gobergs et al., 2016). Abbildung 4 verbildlicht die Anatomie von HLHS.

**Abbildung 4***Die Anatomie des HLHS***HLHS** Hypoplastisches Linksherzsyndrom

*Abkürzungen:* AO = Aorta; LA = linker Vorhof; LV = linke Herzkammer; PA = Pulmonalarterie; RA = rechter Vorhof; RV = rechte Herzkammer. *Anmerkung.* Der schwarze Pfeil deutet auf die bestehenden Fehlbildungen. *Quelle.* Von Herzkinder Österreich (2023). Copyright von Herzkinder Österreich 2023.

Nach Diagnosestellung müssen Familien sowohl über die möglichen Behandlungsoptionen als auch über die Möglichkeit eines Schwangerschaftsabbruchs beraten werden (DGPK, 2022). Eine weitere Option neben dem Schwangerschaftsabbruch ist der als ‚compassionate care‘ bezeichnete Therapieverzicht nach der Geburt unter der gleichzeitigen palliativen Gabe von Beruhigungs- und Schmerzmedikamenten (Gobergs et al., 2016). Bis zu den 1980er-Jahren stellte dieser Weg neben einem Schwangerschaftsabbruch die einzige Vorgehensweise dar, da bis zu diesem Zeitpunkt, außer einer Herztransplantation im Neugeborenenalter, keine chirurgische Behandlung möglich war (Gobergs et al., 2016). Seit Anfang der 1980er-Jahre besteht eine zweite Therapieoption, die sich aber aufgrund des fehlenden linken Ventrikels auf eine palliative chirurgische Behandlung beschränkt, da keine ‚Zweikammer-Korrektur‘ erreicht werden kann (Rai et al., 2019). Um das Überleben eines Neugeborenen

mit HLHS bis zur chirurgischen Intervention zu ermöglichen, muss der rechte Ventrikel postnatal zunächst beide Kreisläufe versorgen (Saur & Haller, 2019). Voraussetzung dafür ist, dass der Ductus arteriosus, die Verbindung, die sich zwischen der unterentwickelten Aorta und den Pulmonalarterien befindet, nach der Geburt bis zur ersten chirurgischen Intervention mithilfe von Prostaglandinen medikamentös offengehalten wird (Tönsfeuerborn et al., 2021; Üstün et al., 2013). Ansonsten würde bei HLHS nur noch sauerstoffarmes Blut in den Körperkreislauf gelangen und es käme zu einer Unterversorgung mit Sauerstoff, welche automatisch zum Tode führen würde (Vogel et al., 2010). Das Behandlungsverfahren umfasst dann in der Regel drei Operationsschritte und wurde nach Henri Fontan, seinem Erfinder, als ‚Fontanisierung‘ benannt (Kanakis et al., 2009). Die erste Operation findet idealerweise zwischen dem dritten und zehnten Lebensjahr statt (Weldner et al., 1995). Die zweite Operation findet im Alter von vier bis sechs Monaten statt und die dritte wird im Alter von etwa zwei bis vier Jahren durchgeführt (Wald & Mertens, 2022). Das Ziel der Eingriffe, deren chirurgische Durchführung aufgrund ihrer Komplexität und Irrelevanz für die Fragestellung der vorliegenden Arbeit nicht näher beschrieben werden, ist die Sicherstellung des Körperkreislaufs durch die rechte Herzkammer und die Gewährleistung eines funktionierenden passiven Lungenkreislaufs, welcher am Herzen vorbeigeleitet wird und durch den entstehenden Unterdruck im Körperkreislauf sowie die Atemmechanik betrieben wird (Kanakis et al., 2009). Insgesamt sind die Behandlungen mit langen, oft komplikationsreichen Krankenhausaufenthalten und lebenslanger, eingeschränkter körperlicher Belastbarkeit verbunden (Feinstein et al., 2012).

Auch wenn HLHS heutzutage behandelbar ist, handelt es sich dennoch nicht um ein kuratives, sondern lediglich um ein palliatives Therapieverfahren mit unklarer, sehr variabler Prognose. Um die 17% der Kinder mit HLHS versterben infolge der ersten Operation (Meza et al., 2023) und die Sterblichkeitsrate zwischen der ersten und zweiten Operation lag für bis 2007 operierte Kinder zwischen 11% und 15% (Furck et al., 2010). Auch treten im Langzeitverlauf häufig Herzrhythmusstörungen auf und weitere Eingriffe können notwendig werden (Hsu, 2015). Zudem entwickeln sich bei bis zu 18% der Kinder mit HLHS nach der ‚Fontanisierung‘ weitere schwerwiegende Komplikationen, wie das Eiweißverlustsyndrom oder die plastische Bronchitis, infolge derer 30% der betroffenen Kinder innerhalb von fünf Jahren verstarben oder eine Transplantation benötigten (Sharma et al., 2021). Darüber hinaus erlitten in den ersten sechs Jahren nach der ‚Fontanisierung‘ 20% eine Embolie, 15% einen Krampfanfall und fast 8% einen Schlaganfall (Newburger et al., 2018). Studien zufolge überlebten zwar bis zu 65% der Kinder mit HLHS die ersten fünf Jahre (Wald & Mertens, 2022), aber aufgrund der oben genannten schwerwiegenden Langzeitkomplikationen sowie resultierender Lebererkrankungen und Herzversagen erreichten nur etwa 14% der Kinder mit HLHS das Erwachsenenalter, ohne transplantiert zu werden (Wilson et al., 2018). Eine Arbeit mit einer anderen Kohorte fand vielversprechendere Überlebensraten von 95%, 88% bzw. 76% nach einem, zehn bzw. 20 Jahren und identifizierte ein frühes Operationsdatum als Prädiktor

für eine höhere Früh- und Spätsterblichkeit (Dabal et al., 2014). Die 10-Jahres-Überlebensrate für Kinder, die im Jahr 2000 operiert wurden, liegt demzufolge bei 89% und für Kinder, die 2010 operiert wurden, bei 94% (Dabal et al., 2014). Nichtsdestotrotz sind und bleiben Kinder mit HLHS ein Leben lang auf eine kinder-kardiologische Behandlung, Überwachung, Medikation sowie Endokarditis-Prophylaxe angewiesen (Baumgartner et al., 2021) und bei einem endgültigen Versagen des Fontan-Kreislaufs bleibt die Herztransplantation ihre letzte Therapieoption (Dipchand et al., 2022).

#### **4.7 Die Belastungen der Geschwister durch die Auswirkungen von angeborenen Herzfehlern auf das Familiensystem**

Wie in den vorausgegangenen Abschnitten geschildert, haben AHF tiefgreifende Auswirkungen auf die Betroffenen selbst, aber auch die Familien der Kinder mit AHF sind auf vielfältige Weise von der Erkrankung betroffen (Caris et al., 2018; Denniss et al., 2019; Freitas et al., 2013). Insbesondere die Eltern, die oft schon vor der Geburt von dem AHF erfahren und ihre Kinder dann lebenslang bei der Bewältigung der beschriebenen Symptome und notwendigen Behandlungen begleiten müssen, sind besonders stark belastet (Biber et al., 2019; Lawoko & Soares, 2002, 2006; Sood et al., 2018). Sie berichten von erheblichem Stress und negativen Auswirkungen der AHF auf das gesamte Familiensystem, was sich wiederum nachteilig auf die Geschwister auswirkt (Caris et al., 2018; Kaugars et al., 2018; Wei et al., 2015). Nahezu alle Kinder mit AHF müssen bereits nach ihrer Geburt stationär behandelt werden. Aus diesem Grund fällt ein Elternteil, je nach Dauer und Intensität der benötigten Behandlung, für einen Zeitraum von Wochen bis hin zu mehreren Monaten zu Hause aus (de Man et al., 2021). In der Regel handelt es sich hierbei aufgrund von gesellschaftlichen Rollenerwartungen und Stillwunsch um die Mütter (McCarter-Spaulding, 2008; Yuen et al., 2022), die aus demselben Grund auch vorwiegend die primären Bindungspersonen gesunder Geschwister sind (Ridgeway & Correll, 2004). Dies führt wiederum zu erheblichen Schwierigkeiten bei der Geschwisterbetreuung sowie daraus resultierender Frustration und Schuldgefühlen der Mütter gegenüber den gesunden Geschwistern (Sood et al., 2018). Hinzu kommt, dass Väter Probleme haben, ihre beruflichen Verpflichtungen und die Betreuung der Geschwister mit der Unterstützung der Mütter in Einklang zu bringen (Sood et al., 2018). Die Krankenhausaufenthalte sind zudem oft zeitintensiv und können sich insbesondere in den ersten Lebensjahren des Kindes mit AHF, wie oberhalb beschrieben, wiederholen (Connor et al., 2005; Van Der Bom et al., 2011). Auch sind sie begleitet von starken Angstgefühlen sowie antizipatorischer Trauer aufgrund der Angst, das Kind mit AHF zu verlieren, (de Man et al., 2021) und sie erwecken bei vielen Eltern das Gefühl einer unklaren Prognose (Wray & Maynard, 2005). Eltern von Kindern mit AHF sind zudem stärker von Depressionen, Angst und Hoffnungslosigkeit betroffen als Eltern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen sowie Eltern von gesunden Kindern (de Man et al., 2021; Lawoko & Soares, 2002). Diese Einschränkungen der psychischen Gesundheit der Eltern (Biber et al., 2019; Wei et al.,



2015) wirkt sich in der Folge negativ auf ihre Erziehungsfähigkeit und die Eltern-Kind-Beziehung, auch zu den gesunden Geschwistern, aus (Kolaitis et al., 2017).

Neben den Herausforderungen in Akutsituationen wie einem Krankenhausaufenthalt, sind es die tagtäglichen und andauernden Belastungen, die den Familien von Kindern mit AHF und in der Folge auch den Geschwistern zu schaffen machen (Connor et al., 2010; de Man et al., 2021; Gregory et al., 2018; Kolaitis et al., 2017; Sood et al., 2018). Der Gesundheitszustand der Kinder mit AHF ist insbesondere bei moderaten und komplexen AHF auch postoperativ in den ersten Lebensjahren oft fragil (Gaskin, 2018; Woodward, 2011). Gewöhnliche Atemwegsinfektionen, die bei gesunden Kindern oft unkompliziert verlaufen, wie beispielsweise das Respiratory Syncytial Virus oder Influenza A oder B, stellen eine Hauptursache für Morbidität und Mortalität in dieser Gruppe dar. Aus diesem Grund müssen die Familien darauf achten, ihre Kinder mit AHF bestmöglich davor zu schützen, indem sie beispielsweise größere Menschenansammlungen meiden und Hygieneregeln penibel beachten (Woodward, 2011). Dies ist jedoch eine Herausforderung, speziell, wenn Geschwister in der Familie leben, die eine häufige Quelle der Ansteckung mit Atemwegsinfekten sind (Fiore et al., 2009) und somit einen Risikofaktor für einen erneuten Krankenhausaufenthalt darstellen (Haerskjold et al., 2016). Häufig minimieren die Eltern aus Vorsicht daher die sozialen Kontakte aller Familienmitglieder, vermeiden Verabredungen und nehmen die Kinder mit AHF und ihre Geschwister unter Umständen sogar aus der Kinderbetreuung (Dalir et al., 2021). Auch kann ein Atemwegsinfekt zur Absage oder Verschiebung eines geplanten Eingriffs, oder schlimmstenfalls zu gravierenden Komplikationen bis hin zum Tode des Kindes mit AHF führen, falls ein beginnender Infekt vor dem Eingriff unentdeckt bleibt (Delgado-Corcoran et al., 2014; da Silva et al., 2019). Weitere Belastungsquellen sind häufige Trink- und Fütterungsschwierigkeiten bei Kindern mit AHF, die zu großer nervlicher Anspannung in Fütterungssituationen und Stresssituationen bei gemeinsamen Mahlzeiten führen können (de Man et al., 2021). Hinzu kommen häufige Termine bei Ärzten und anderen Behandlern wie Physiotherapeuten, Ergotherapeuten und Logopäden, die komplizierte Handhabung von medizinischen Geräten und kraftraubende Auseinandersetzungen mit Kostenträgern im Gesundheits- und Versicherungssystem, die elterliche emotionale und zeitliche Kapazitäten von den Geschwistern abziehen (Sood et al., 2018). Auch erfolgt die „Transition“ laut einer Studie bei Kindern mit AHF häufig verzögert (Clarizia et al., 2009). Hierbei handelt es sich um die sensible Phase des Übergangs von der Kinder- zur Erwachsenenmedizin, mit entsprechender, dem Entwicklungsstand angepasster gradueller Zunahme an Verantwortung für die eigene Erkrankung durch die Betroffenen selbst. So fanden Clarizia und Kollegen (2009) heraus, dass die Mehrheit der befragten Eltern ihre Kinder mit AHF im Jugendalter weiterhin zu Arztterminen begleiten und an der Medikamentenvergabe beteiligt ist. Für die Geschwister bedeutet dies, dass sie gegebenenfalls über einen Zeitraum von mehreren Jahren bis Jahrzehnte weniger Aufmerksamkeit und Unterstützung bei schulischen sowie sozialen Aktivitäten von ihren Eltern erhalten (Connor et al., 2010). Auch gaben Eltern an, dass AHF sich direkt, beispielsweise durch erhöhte Fahrtkosten zu Behandelnden, oder für medizinische Zuzahlungen, aber auch

indirekt, wie durch Reduktion oder gänzlicher Aufgabe der Berufstätigkeit, nachteilig auf die finanzielle Situation der Familie und somit auf die Teilhabemöglichkeiten der Geschwister auswirkten (Connor et al., 2010; Gregory et al., 2018; Kolaitis et al., 2017).

Zusammengenommen haben das lebensbedrohliche Potenzial in Akutsituationen und die chronischen familiären Dauerbelastungen durch die besonders bei moderaten bis komplexen AHF lebenslang notwendigen, zeit- und nervenaufreibenden sowie finanziell einschränkenden Konsequenzen der Erkrankung (Lindinger et al., 2010; Warnes, 2005; Warnes et al., 2001) tiefgreifende Auswirkungen auf die gesellschaftliche Teilhabe von Geschwistern von Kindern mit AHF, die sich negativ auf ihre schulischen Leistungen, ihr Verhalten, ihre Gesundheit und ihre LQ auswirken (Azhar et al., 2016; Connor et al., 2010; Denniss et al., 2019; Parker et al., 2020).

## 5 Forschungslücken

Trotz vielfältiger Hinweise, dass Geschwister von Kindern mit AHF durch die Auswirkungen der Erkrankung auf das Familiensystem belastet sind, hat bislang keine Übersichtsarbeit die Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF ermittelt, um festzustellen, ob diese stärker oder auf eine andere Weise betroffen sind als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen. Darüber hinaus wurden bisher keine soziodemografischen oder krankheitsbezogenen Faktoren identifiziert, die mit den Auswirkungen von AHF bei Geschwistern zusammenhängen, um mögliche Gruppen von Geschwistern zu identifizieren, die besonders belastet sind. Auch wurden bisher keine Interventionen ermittelt, die Geschwister von Kindern mit AHF direkt miteinbeziehen.

Eine weitere Forschungslücke stellen die wahrgenommenen negativen und positiven Erfahrungen von Geschwistern von Kindern mit AHF im Zusammenhang mit der AHF-Diagnose dar, die bisher ebenfalls unerforscht blieben. Auch der Unterstützungsbedarf der Geschwister, in Form des Interesses an einer potenziellen supportiven Intervention, sowie Schlüsselthemen und Rahmenbedingungen einer solchen Intervention wurden noch nie direkt abgefragt, obwohl diese Erkenntnisse wertvolle Implikationen für zukünftige, maßgeschneiderte Unterstützungsangebote für Geschwister von Kindern mit AHF bergen würden.

Zuletzt ist anzumerken, dass auch die Auswirkung von AHF auf die HRQoL in einer großen Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit AHF im Vergleich zu einer Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit einer anderen chronischen Erkrankung sowie Prädiktoren für die HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF noch nicht bestimmt wurden, obwohl das Konstrukt HRQoL im Kontext von Adoleszenz neben einem Gesamt-HRQoL-Score alle Bereiche des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ vereint, die für Jugendliche im Zusammenhang mit chronischen Erkrankungen relevant sind. Diese sind insbesondere körperliches Wohlbefinden, psychologisches Wohlbefinden, Autonomie und Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie das schulische Umfeld. Daher könnte anhand dieser Daten ein gleichermaßen umfassender wie differenzierter Blick auf die HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF ermöglicht sowie Risikogruppen von Geschwistern ermittelt werden, die einen besonderen Unterstützungsbedarf haben und daher im Betreuungsprozess besonders berücksichtigt werden sollten.

## 6 Übergeordnete Fragestellungen der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen

Ausgehend von den zuvor dargelegten Forschungslücken, ergaben sich für die vorliegende monografische Dissertation mit Teilpublikationen die folgenden übergeordneten Fragestellungen, die im Rahmen eines systematischen Reviews, einer qualitativen Interviewstudie, sowie einer Online-Querschnittstudie untersucht wurden.

1. Ziel der systematischen Übersichtsarbeit war es, die Auftretenshäufigkeit und die Art des verminderten psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF zu ermitteln, um festzustellen, ob diese stärker und auf andere Weise betroffen sind als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen. Darüber hinaus sollten soziodemografische und krankheitsbezogene Faktoren erforscht werden, die mit dem psychosozialen Wohlbefinden und der LQ der Geschwister in positivem oder negativem Zusammenhang stehen und als mögliche Ansatzpunkte für die spätere Identifikation besonders unterstützungsbedürftiger Geschwister von Kindern mit AHF dienen könnten. Schließlich sollte ermittelt werden, ob es Interventionen gibt, die Geschwister von Kindern mit AHF direkt einbeziehen und wenn ja, welche Vorteile diese bieten.
2. Auf Basis der Ergebnisse des ersten Beitrages ergaben sich weitere Forschungslücken, die zu folgenden explorativen Fragestellungen führten: Welche negativen und positiven Erfahrungen machen Geschwister von Kindern mit AHF im Zusammenhang mit der AHF-Diagnose, d. h. welche Ängste, Sorgen, Belastungen und Schwierigkeiten haben Geschwister von Kindern mit AHF, welche Bewältigungsmechanismen nutzen die Geschwister bereits und gibt es auch wahrgenommene positive Auswirkungen der Erkrankung? Wie steht es um den Unterstützungsbedarf der Geschwister? Interessieren Geschwister von Kindern mit AHF sich überhaupt für die Teilnahme an einer supportiven Intervention? Falls ja, was wären ihre Gründe, an einer solchen Intervention teilzunehmen, welche Themen begründen ihr Interesse und welche Rahmenbedingungen wünschen sie sich? Ziel dieser qualitativen Interviewstudie ist es demzufolge, krankheitsspezifische Erfahrungen von Geschwistern mit AHF zu erforschen, die negativ und positiv mit der Diagnose zusammenhängen, sowie Unterstützungsinteresse und Art des Unterstützungsbedarfes der Geschwister anhand von Interviews mit Geschwister-Eltern-Dyaden zu untersuchen.
3. Ebenfalls auf Basis der Ergebnisse des systematischen Reviews ergaben sich zusätzliche Forschungslücken, die im Rahmen der vorliegenden quantitativen Online-Querschnittstudie geschlossen werden sollten. So zielte diese Studie erstens darauf ab, die Gesamt-HRQoL sowie die HRQoL-Domänen körperliches Wohlbefinden, psychologisches Wohlbefinden, Autonomie und Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie schulisches Umfeld an einer großen Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit AHF im Vergleich zu einer Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes zu untersuchen. Zweitens sollten auf Basis mehrerer, zuvor im systematischen Review ermittelten assoziierten Faktoren von beeinträchtigtem psychosozialen Wohlbefinden und

LQ, Prädiktoren für die Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF bestimmt werden. Hierzu wurden zwei Hypothesen aufgestellt. Erstens wurde postuliert, dass Geschwister von Kindern mit AHF niedrigere Werte in der Gesamt-HRQoL und in allen der fünf oberhalb genannten HRQoL-Domänen haben als Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes. Zweitens wurde angenommen, dass das Alter der Geschwister, ihre Position in der Geburtsreihenfolge, ihr Geschlecht und die Sichtbarkeit sowie Komplexität der Erkrankung ihrer Geschwister als Prädiktoren für eine niedrigere Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF fungieren.

## **7 Zusammenfassung der Teilbeiträge der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen**

Im Folgenden werden die drei wissenschaftlichen Teilbeiträge der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen vorgestellt. Der publizierte erste Beitrag (Schamong et al., 2021) sowie die Manuskripte des zweiten (Schamong et al., 2022 subm) und dritten Beitrages (Schamong et al., 2023 subm) und das zugehörige supplementary material sind dem Anhang in Kapitel 10 zu entnehmen.

### **7.1 BEITRAG I: Psychosoziales Wohlbefinden und Lebensqualität bei Geschwistern von Kindern mit angeborenen Herzfehlern: ein systematisches Review**

In diesem Kapitel wird der erste Forschungsbeitrag, in Form eines systematischen Reviews zum psychosozialen Wohlbefinden und der LQ von Geschwistern von Kindern mit angeborenen Herzfehlern (Schamong et al., 2021), hinsichtlich seiner Zielsetzung, seiner Methodik, seinen Ergebnissen, der kritischen Diskussion dieser Ergebnisse und der daraus abgeleiteten Schlussfolgerungen vorgestellt. Der veröffentlichte Zeitschriftenartikel und das zugehörige supplementary material sind Anhang A in Kapitel 10 zu entnehmen.

#### **7.1.1 Hintergrund und Studienziele**

AHF sind das Ergebnis von Defekten in der Struktur des Herzens eines Neugeborenen (Casey, 2016). Bei fast einem Drittel aller angeborenen Fehlbildungen handelt es sich um AHF (Dolk et al., 2010). Die Prävalenz wird auf ca. 1% geschätzt und hat in den letzten Jahrzehnten erheblich zugenommen (Bernier et al., 2010; Lindinger et al., 2010; Liu et al., 2019; Van Der Linde et al., 2011). Aufgrund großer Fortschritte in der kardiovaskulären Diagnostik und Chirurgie werden weltweit jedes Jahr etwa 1,35 Millionen Babys mit AHF geboren (Van Der Linde et al., 2011).

Wie bereits zuvor erwähnt, können negativen Folgen einer Behandlung der AHF, wie starke Ängste, Ungewissheit über die Zukunft und das lebensbedrohliche Potenzial der Krankheit, zu psychologischen Schwierigkeiten und dem Verlust sozialer Kontakte bei den Kindern mit AHF und ihren Familien führen (Denniss et al., 2019).

Bisher standen die Geschwister von Kindern mit AHF nicht im Mittelpunkt des Forschungsinteresses, obwohl aufgrund des besonderen Aufmerksamkeitsbedarfs der Kinder mit AHF für deren Geschwister ein hohes Risiko besteht, in den Hintergrund gedrängt zu werden und zu sogenannten ‚Schattenkindern‘ zu werden (Connor et al., 2010; Naylor & Prescott, 2004). Mehrere Studien und Metaanalysen deuten darauf hin, dass Geschwister von Kindern mit chronischen Erkrankungen im Vergleich zu Gleichaltrigen generell mehr psychosoziale Schwierigkeiten und eine geringere LQ aufweisen (Hanvey et al., 2022; Havill et al., 2019; Mariñez et al., 2022; Sharpe & Rossiter, 2002; Vermaes et al., 2012; Woodgate et al., 2016). Auch geben ca. ein Drittel der Geschwister von Kindern mit chronischen Erkrankungen an, von mittlerem bis hohem Stress betroffen zu sein (Kowalewski et al., 2014). Sie er-

leben verminderte elterliche Aufmerksamkeit und gleichzeitig erhöhte elterliche Erwartungen, mit teilweiser Übertragung der Verantwortung für das chronisch erkrankte Kind, Loyalitätskonflikten, Wut, Eifersucht, Schuldgefühlen, Einschränkung der gesellschaftlichen Teilhabe und Stigmatisierung (Sharpe & Rossiter, 2002; Vermaes et al., 2012; Woodgate et al., 2016).

Kürzlich haben Parker et al. (2020) die bisherige Forschung über Geschwister von Kindern mit AHF zusammengefasst und schlussfolgerten, dass die Geschwister Veränderungen im Leben erfuhren, die sich negativ auf ihre schulischen Leistungen, ihr Verhalten, ihre LQ und ihre Gesundheit auswirkten. Bislang hat jedoch keine Übersichtsarbeit systematisch die Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF untersucht und ermittelt, ob diese stärker, oder auf andere Weise beeinträchtigt sind als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen. Darüber hinaus hat keine Übersichtsarbeit darauf abgezielt, assoziierte Faktoren für diese Konstrukte zu ermitteln, noch wurden Interventionen identifiziert, die direkt auf Geschwister von Kindern mit AHF abzielen.

Studienziele. Ziel dieser systematischen Übersichtsarbeit ist es, die Auftretenshäufigkeit und die Art des verminderten psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF zu ermitteln, um festzustellen, ob sie stärker und auf andere Weise betroffen sind als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen. Darüber hinaus sollen Faktoren erforscht werden, die mit den Auswirkungen des AHF auf Geschwister in Zusammenhang stehen und als mögliche Ansatzpunkte für die Identifikation besonders belasteter Geschwister und zur Gestaltung von Interventionen dienen. Schließlich sollen bereits existierende Interventionen identifiziert werden, die Geschwister von Kindern mit AHF miteinbeziehen, sowie die Vorteile analysiert werden, die diese bieten.

### **7.1.2 Methodik**

Die Methoden für diese systematische Übersichtsarbeit wurden zuvor in einem Protokoll festgelegt, das im November 2019 auf einem internationalen, prospektiven Register für systematische Reviews registriert wurde (aus dem Englischen; international prospective register of systematic reviews; PROSPERO): [https://www.crd.york.ac.uk/prospero/display\\_record.php?RecordID=156295](https://www.crd.york.ac.uk/prospero/display_record.php?RecordID=156295). Eine Suche in den Datenbanken von PROSPERO und Cochrane vor Beginn unserer systematischen Übersichtsarbeit ergab, dass außer der Studie von Parker und Kollegen (2020) in diesem Zeitraum keine systematischen Übersichtsarbeiten veröffentlicht oder durchgeführt wurden.

Basierend auf den Schlüsselbegriffen AHF, Geschwister, psychosoziales Wohlbefinden und LQ, die mithilfe eines PICO-Schemas, zur Feststellung der Zielpopulation, der Intervention, der Vergleiche und der Zielvariablen von Interesse, festgelegt wurden, wurden iterative Scoping-Recherchen durchgeführt, die zur folgenden, endgültigen PubMed-Suchstrategie führten:

*((*"Heart Defects, Congenital"*[MeSH Terms] OR *Congenital Heart Defect*\*[tiab] OR *Heart Abnormalit*\*[tiab] OR *Pediatric Cardiac Surgery*\*[tiab] OR *Congenital Cardiac defect*\*[tiab] OR *Congenital Cardiac diseas*\*[tiab] OR *Child Heart diseas*\*[tiab] OR *Congenital Heart malformation*\*[tiab] OR *Pediatric cardiology*\*[tiab] OR *Childhood chronic heart diseas*\*[tiab]))*

AND

*(*Siblings* [MeSH Terms] OR *"Sibling Relations"*[MeSH Terms] OR *sibling*\*[tiab] OR *sib*\*[tiab] OR *brother*\*[tiab] OR *sister*\*[tiab]))*.

Eine breite Suchstrategie wurde gewählt, um das Risiko zu minimieren, relevante Literatur zu übersehen, falls nicht alle Suchbegriffe, die psychosoziales Wohlbefinden und LQ widerspiegeln, inkludiert wurden. Es wurden systematische Suchen ohne Beschränkung des Veröffentlichungsdatums in PubMed über MEDLINE, in PsycINFO, in PsycARTICLES, in Web of Science über EBSCOhost und in CENTRAL sowie manuelle Suchen in den Literaturangaben durchgeführt. Für die Literatursuche, die von November 2019 bis Oktober 2020 durchgeführt wurden, wurden automatische Alarmer eingerichtet. Die Recherchen wurden vor der endgültigen Analyse am 26. September 2020 manuell wiederholt. Zwei Forschende überprüften die Artikel unabhängig voneinander. Unstimmigkeiten wurden durch Diskussion ausgeräumt.

Es wurden alle Studien inkludiert, die folgende Einschlusskriterien erfüllten: (i) Studientyp: Originalstudien aller Art, (ii) Teilnehmende: Geschwister von Kindern mit AHF und Eltern von Kindern mit AHF sowie einem gesunden Kind, (iii) Art der Zielvariablen: Psychosoziales Wohlbefinden und LQ sowie Interventionen, die Geschwister von Kindern mit AHF einschließen, (iiii) Sprachen: Englisch oder Deutsch.

Die eingeschlossenen Studien wurden der Datenextraktion und der Prüfung mit einem Bewertungsinstrument zur Beurteilung der Qualität von Querschnittsstudien unterzogen (a critical appraisal tool to assess the quality of cross-sectional studies; AXIS-tool, Downes et al., 2016). Das Reporting entspricht den bevorzugten Kriterien für die Berichterstattung über systematische Übersichten und Meta-Analysen (aus dem Englischen; preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses; PRISMA; Moher et al., 2009). Die ausgefüllte PRISMA-Checkliste ist einzusehen in Anhang A, supplementary material von Beitrag I (Schamong et al., 2021), Supplementary Table A1.

Instrumente zur Messung der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens wurden von Instrumenten unterschieden, die beanspruchten, Beeinträchtigungen der LQ aufzudecken. Diese Vorgehensweise ermöglichte eine Unterscheidung zwischen dem selektiven negativen Einfluss der AHF auf das engere Konstrukt des psychosozialen Wohlbefindens, das durch Beeinträchtigungen des psychologischen Wohlbefindens, wie psychische Belastungen sowie Beziehungs- und Verhaltensprobleme gekennzeichnet ist (Tsang et al., 2012; Winterbotham & du Preez, 2016), und einem negativen Einfluss auf das globale Konstrukt der LQ, das neben dem psychosozialen Wohlbefinden das physische und materielle Wohlbefinden miteinschließt (Lipscomb et al., 2011).



### 7.1.3 Ergebnisse

Es wurden insgesamt 1848 Referenzen in ein Programm zur systematischen Literaturorganisation importiert (Covidence; Veritas Health Innovation, 2016), wovon 23 Volltexte hinsichtlich der Ein- und Ausschlusskriterien geprüft und 12 Studien in das systematische Review eingeschlossen wurden. Eine exakte, visuelle Darstellung des Prozesses der Studienauswahl befindet sich in Kapitel 10, Anhang A, Figure 1 (Schamong et al., 2021).

Qualitätsbeurteilung der eingeschlossenen Studien. Die Ergebnisse der Qualitätsbeurteilung der eingeschlossenen Studien ergab, dass, mit Ausnahme einer Studie (Wray & Maynard, 2005), alle Studien eine unvollständige Berichterstattung in Bezug auf die verwendeten Methoden, die Ergebnisse oder die Diskussion aufwiesen. Eine Studie berichtete in allen Bereichen mit Ausnahme der Studienziele unzureichend (Apley et al., 1967). Dies führte zu einer größtenteils mangelnden Nachvollziehbarkeit der Studiendesigns sowie der resultierenden Ergebnisse. Die detaillierten Ergebnisse der Qualitätsbeurteilung der eingeschlossenen Studien, adaptiert nach Downes und Kollegen (2016), sind enthalten in Kapitel 10, Anhang A, Supplementary Table A2.

Beschreibung der eingeschlossenen Studien. Die eingeschlossenen Studien wurden zwischen 1967 und 2019 in neun verschiedenen Ländern wie USA, Großbritannien, Australien, Belgien, Kanada, Niederlande, Pakistan, Philippinen und Saudi-Arabien durchgeführt. Die Studienziele, die Methoden, die Art der Stichproben bestehend aus Geschwistern, Geschwistern und Eltern oder nur Eltern und die Stichprobengrößen (Geschwister:  $n = 14 - 131$ ; Eltern:  $n = 19 - 209$ ) variierten stark zwischen den Studien. Fünf der Studien waren älter als 25 Jahre (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997; Lavigne & Ryan, 1979; Menke, 1987). In den Studien wurden sowohl quantitative (Apley et al., 1967; Azhar et al., 2016; Caris et al., 2018; Havermans et al., 2015; Janus & Goldberg, 1997; Lavigne & Ryan, 1979; Mughal et al., 2011; van der Mheen et al., 2019) als auch qualitative Methoden verwendet (Menke, 1987; Redshaw & Wilson, 2012). Mehr als die Hälfte der Studien berücksichtigte nur Berichte von Eltern (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997; Lavigne & Ryan, 1979; Mughal et al., 2011; van der Mheen et al., 2019; Williams et al., 1993; Wray & Maynard, 2005). Die restlichen Studien befragten entweder Geschwister und Eltern (Azhar et al., 2016; Caris et al., 2018; Redshaw and Wilson, 2012), oder konzentrierten sich nur auf Berichte von Geschwistern (Havermans et al., 2015; Menke, 1987). Es wurden sowohl Geschwister von Kindern mit AHF alleine untersucht (Havermans et al., 2015; Menke, 1987) als auch mit Geschwistern von Kindern mit anderen Erkrankungen (Havermans et al., 2015; Lavigne & Ryan, 1979; Menke, 1987; Williams et al., 1993) sowie mit Geschwistern gesunder Kinder verglichen (Havermans et al., 2015; Lavigne & Ryan, 1979). Die Studien, in denen unterschiedliche validierte Messinstrumente sowie selbsterstellte Fragebögen eingesetzt wurden, lieferten sowohl Informationen über das psychosoziale Wohlbefinden (Apley et al., 1967; Caris et al., 2018; Havermans et al., 2015; Janus & Goldberg, 1997; Lavigne & Ryan, 1979; Menke, 1987; van der Mheen et al., 2019; Williams

et al., 1993; Wray & Maynard, 2005) als auch über Faktoren, die mit dem psychosozialen Wohlbefinden in Verbindung stehen (Apley et al., 1967; Caris et al., 2018; Janus & Goldberg, 1997; Lavigne & Ryan, 1979; Menke, 1987; van der Mheen et al., 2019; Williams et al., 1993) sowie über die LQ der Geschwister (Azhar et al., 2016; Havermans et al., 2015; Mughal et al., 2011). Zudem wurden zwei Interventionsstudien identifiziert, die Geschwister von Kindern mit AHF miteinbeziehen (Redshaw & Wilson, 2012; van der Mheen et al., 2019). Die Merkmale und verwendeten Messinstrumente der eingeschlossenen Studien sind detailliert im Anhang A, in Beitrag I (Schamong et al., 2021), Table 3., dargestellt.

Die Datenextraktion führte zu folgenden inhaltlichen Themenbereichen: (1a) Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens der Geschwister von Kindern mit AHF, (1b) Vergleiche des psychosozialen Wohlbefindens mit Geschwistern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen, (1c) psychosoziales Wohlbefinden der Geschwister von Kindern mit AHF: Vergleich der Geschwister- und Elternperspektive, (1d) mit der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens von Geschwistern assoziierte Faktoren, (2a) Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung der LQ der Geschwister von Kindern mit AHF, (2b) Vergleiche der LQ mit Geschwistern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen sowie (3) Interventionen, die Geschwister von Kindern mit AHF miteinbeziehen. Die einzelnen inhaltlichen Themenbereiche werden im Folgenden dargestellt.

(1a) Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens der Geschwister von Kindern mit AHF. Als Einschränkungen des psychosozialen Wohlbefindens wurden psychischen Belastungen wie Angst, Depression, Wut, und Unsicherheit (Apley et al., 1967; Wray & Maynard, 2005), aber auch Verhaltensprobleme (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997), Ängste, dem Kind mit AHF zu nah zu kommen, vermehrte elterliche Aufmerksamkeit für das Kind mit dem AHF und daraus resultierende verminderte gemeinsame Familienunternehmungen (Wray & Maynard, 2005), je nach genutztem Fragebogen und Kriterien, bei 14-40% der Geschwisterkinder identifiziert.

(1b) Vergleiche des psychosozialen Wohlbefindens mit Geschwistern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen. Eine Studie ergab, dass Geschwister von Kindern mit AHF ( $n = 21$ ) die negativen Auswirkungen der Erkrankung im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit anderen Erkrankungen wie Krebs ( $n = 37$ ), Typ-1-Diabetes ( $n = 35$ ), oder Mukoviszidose ( $n = 38$ ) am höchsten bewerteten ( $F(4,127) = 8.61, p < .001$ ; Havermans et al., 2015). Zudem betreuten Mütter von Kindern mit AHF gesunde Geschwister signifikant weniger als Mütter von Kindern mit neurologischen Erkrankungen ( $t(98) = 2.74, p < .010$ ; Williams et al., 1993). Auch machten sich Geschwister von Kindern mit AHF häufiger Sorgen um ihre Geschwister (64%), als Geschwister von Kindern mit Verbrennungen (36%) und Krebs (20%; Menke, 1987).

(1c) Psychosoziales Wohlbefinden der Geschwister von Kindern mit AHF: Vergleich der Geschwister- und Elternperspektive. Eine weitere Studie ermittelte, dass die Eltern von Geschwistern von Kindern mit AHF von signifikant mehr Anpassungsproblemen berichteten ( $M = 2.4$ ,  $SD = 0.4$ ) als die Geschwister selbst ( $M = 2.3$ ,  $SD = 0.3$ ,  $p < .05$ ; Caris et al., 2018).

(1d) Mit der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens von Geschwistern assoziierte Faktoren. Zu den mit der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens von Geschwistern assoziierten Faktoren gehörten ein höheres Alter der Geschwister, das mit einer schlechteren Bewertung der Krankheitsanpassung durch Geschwister und Eltern assoziiert war ( $r = 0.35$ ,  $p < .05$ ; Caris et al., 2018). Darüber hinaus hatten Geschwister, die älter waren als das Kind mit der chronischen Erkrankung, ein größeres Bedürfnis, dieses zu beschützen ( $\chi^2 = 7.27$ ,  $df = 4$ ,  $p = .010$ ; Menke, 1987). Weibliches Geschlecht war zudem mit einer doppelt so hohen Beteiligung an Betreuungsaufgaben der Geschwister assoziiert (Williams et al., 1993). Die Mütter berichteten auch über eine signifikante Zunahme der Haushaltstätigkeiten der Geschwister ( $t(98) = 2.32$ ,  $p < .05$ ) und eine Abnahme der sozialen Aktivitäten ( $t(98) = 5.39$ ,  $p < .010$ ). Jedoch hatten die Familien, die an der Studie teilnahmen, überwiegend einen niedrigeren sozioökonomischen Status und hatten in der Regel vier bis sechs Kinder (Williams et al., 1993). In einer Studie wurde festgestellt, dass 33% der als „verhaltensgestört“ eingestuften Geschwister aus Familien mit vorangegangenen Fehlgeburten und 18% aus Familien mit vorangegangenem Tod eines Geschwisterkindes stammten (Apley et al., 1967). Diese Merkmale trafen nur auf die 4% der Geschwister zu, die nicht als „verhaltensgestört“ eingestuft wurden (Apley et al., 1967). Geschwister von Kindern mit sichtbaren Erkrankungen (z. B. Kiefer-Gaumenspalte) waren signifikant stärker sozial zurückgezogen als Geschwister von Kindern mit nicht sichtbaren AHF oder hämatologische Erkrankungen ( $F(1,191) = 14.98$ ,  $p < .010$ ; Lavigne & Ryan, 1979). Die Ergebnisse hinsichtlich der Komplexität der AHF waren uneinheitlich. Zum einen wurde eine höhere Komplexität der AHF mit psychosomatischen Störungen (Apley et al., 1967), Angst, Depression, Wut, Unsicherheit und Eifersucht (Wray & Maynard, 2005) sowie mit elterlicher Unaufmerksamkeit (Janus & Goldberg, 1997) und eingeschränkten Familienaktivitäten (Wray & Maynard, 2005) in Verbindung gebracht. In einer weiteren Studie konnte wiederum kein Zusammenhang zwischen der Komplexität der AHF und psychischen Erkrankungen bei Geschwistern von Kindern mit AHF festgestellt werden (Lavigne & Ryan, 1979).

(2a) Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung der LQ der Geschwister von Kindern mit AHF.

Die LQ war bei bis zu einem Drittel der Geschwister beeinträchtigt (Azhar et al., 2016). Darunter waren 33% eifersüchtig auf das Kind mit dem AHF, 19% fühlten sich von ihren Eltern vernachlässigt und 11% waren in ihren schulischen Leistungen beeinträchtigt. Die psychologischen Auswirkungen auf die LQ der Geschwister ( $M = 24.96$ ,  $SD = 24,6$ ) waren fast so hoch wie die Auswirkungen auf Kinder mit dem AHF selbst ( $M = 28.7$ ,  $SD = 28.82$ ; Impact Scores: 0 - 100; Azhar et al., 2016). Eine pakistanische Studie ergab zudem negative Auswirkungen auf die Schulbildung bei 23% und auf die Gesundheit bei 26% der Geschwister (Mughal et al., 2011).

(2b) Vergleiche der LQ mit Geschwistern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen. Eine Studie mit kleinen Fallzahlen ergab, dass Geschwister von Kindern mit AHF ( $n = 21$ ) und Krebs ( $n = 37$ ) ihre LQ in Bezug auf ihr Verhalten, internalisierende Probleme ( $F(4,127) = 4.03, p < .010$ ), ihre psychische Gesundheit ( $F(4,127) = 4.74, p < .010$ ) und ihr Selbstwertgefühl ( $F(4,127) = 3,25, p < .050$ ) schlechter bewerteten als Geschwister von Kindern mit Mukoviszidose ( $n = 38$ ) oder Typ-1-Diabetes ( $n = 35$ ; Havermans et al., 2015).

(3) Interventionen, die Geschwister von Kindern mit AHF miteinbeziehen. Insgesamt wurden zwei Interventionsstudien identifiziert. Eine qualitative Interviewstudie von Redshaw und Wilson (Redshaw & Wilson, 2012) richtete sich zwar nicht direkt an Geschwister, jedoch profitierten diese von den Perlen, die die Kinder mit AHF im Rahmen des „Heart Beads Program“ für jede medizinische Intervention erhielten. Die Perlen ermöglichten den Geschwistern, über ihre Gefühle und Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF zu sprechen, und die Eltern konnten mithilfe der Perlen besser erklären, was bei den Behandlungen passierte (Redshaw & Wilson, 2012).

Bei der zweiten Interventionsstudie handelte es sich um eine eintägige Intervention für Familien von Kindern mit AHF (aus dem Englischen; Congenital Heart Disease Intervention Program-Family; CHIP-Family), die auf die Verbesserung des psychosozialen Wohlbefindens von Familien von Kindern mit AHF abzielte und Geschwister zur ‚Normalisierung‘ der Kinder mit AHF miteinschloss (van der Mheen et al., 2019). Die Kinder führten Übungen zur Verbesserung des Selbstwertgefühls, der Emotionsregulation, zur Entspannung, zur Problemlösung, zum positiven Denken und ein körperliches Training durch. Zeitgleich nahmen die Eltern an einem Training zum Erwerb von Problemlösungsstrategien mittels Psychoedukation und einer medizinischen Schulung teil. Die Studie enthielt keinen separaten Fragebogen für Geschwister, sondern nur einen Fragebogen, der das gesamte „family functioning“ erhob, welches sich durch die Intervention jedoch nicht signifikant verbesserte (van der Mheen et al., 2019).

#### **7.1.4 Diskussion**

Die vorliegende Übersichtsarbeit gibt Einblick in die Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF und ermittelte auch assoziierte Faktoren dieser Konstrukte. Zudem konnte eine Intervention identifiziert werden, die Geschwister von Kindern mit AHF miteinschloss, jedoch nicht direkt auf sie abzielte. Obwohl die Überprüfung durch heterogene Datenquellen und durch Studien mit unterschiedlichen Zielen, Stichproben, Messinstrumenten und Studienqualität eingeschränkt war, konnten einige wertvolle Erkenntnisse gewonnen werden.

Psychosoziales Wohlbefinden und LQ. Das psychosoziale Wohlbefinden war je nach Messinstrument der Originalstudien bei 14-40% der Geschwister beeinträchtigt, was im Umkehrschluss bedeutet, dass das psychosoziale Wohlbefinden von mindestens 60% der Geschwister unbeeinträchtigt blieb (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997; Wray & Maynard, 2005). Methodische Schwächen wie

unklare Rekrutierungsverfahren, teils undefinierte und uneinheitliche Fragebögen und insbesondere das Alter der Studie von Apley und Kollegen (1967) machen einen Vergleich zu heutigen klinischen Studien und klinischer Versorgung unmöglich. Obwohl die Ergebnisse von Apley und Kollegen (1967) demnach mit Vorsicht zu interpretieren sind, war diese bahnbrechende Studie die erste, die sich überhaupt mit den Schwierigkeiten von Geschwistern von Kindern mit AHF befasste. Janus und Goldberg (1997), die feststellten, dass 14% der Geschwister belastet waren, berücksichtigten zudem nur Teilnehmende mit Verhaltensproblemen „klinischen Ausmaßes“ (per definitionem 1 *SD* über dem Durchschnitt). Daher war der tatsächliche Anteil der von Einschränkungen im psychosozialen Wohlbefinden betroffenen Teilnehmenden in ihrer Stichprobe vermutlich höher.

Die LQ war bei bis zu einem Drittel der Geschwister beeinträchtigt, was ebenfalls darauf schließen lässt, dass die LQ von mindestens zwei Dritteln der Geschwister nicht beeinträchtigt war (Azhar et al., 2016; Mughal et al., 2011). Das psychosoziale Wohlbefinden war bei einem höheren Prozentsatz der Geschwister von Kindern mit AHF beeinträchtigt als die LQ, was wiederum darauf hindeutet, dass Faktoren, die bereits von den LQ-Fragebögen erfasst wurden, wie z. B. eine starke schulische Bindung oder enge Beziehungen, als Schutzfaktoren wirken, die den psychosozialen Stress verringern (Werner, 2013).

Eine Studie ergab, dass Geschwister von Kindern mit AHF die negativen Auswirkungen der Erkrankung auf ihr psychosoziales Wohlbefinden im Vergleich zu Kindern mit Krebs, zystischer Fibrose oder Typ-1-Diabetes am höchsten bewerten (Havermans et al., 2015). Darüber hinaus bewerteten Geschwister von Kindern mit AHF und Krebs ihre LQ geringer als die Geschwister von Kindern mit Mukoviszidose oder Typ-1-Diabetes (Havermans et al., 2015). Eine Erklärung dafür könnte das dauerhaft lebensbedrohliche Potenzial von AHF sein, dass zu dauerhafter Angst und mehr Krankenhausaufenthalten, mit abwesenden Eltern, ab dem Zeitpunkt der Geburt des Geschwisterkindes führt (Connor et al., 2005; Van Der Bom et al., 2011). Dies ist bei Kindern mit Krebs, Mukoviszidose oder Typ-1-Diabetes nach den Ergebnissen der Studie von Havermans und Kollegen (2015) nicht der Fall. Besonders deutlich ist der Unterschied bei moderaten und komplexen AHF, von denen etwa 40% der Kinder mit AHF betroffen sind (Lindinger et al., 2011), da lebenslang wiederkehrende medizinische Eingriffe erforderlich sind und keine Aussicht auf vollständige ‚Heilung‘ besteht (Caris et al., 2018; Warnes, 2005). Aus diesem Grund machten sich die Geschwister von Kindern mit AHF vermutlich auch mehr Sorgen um ihre Brüder und Schwestern als Geschwister von Kindern mit Verbrennungen und Krebs (Menke, 1987).

In der Studie von Azhar und Kollegen (2016) wurde festgestellt, dass die psychologischen Auswirkungen des AHF auf die LQ der Geschwister fast so hoch waren wie die Auswirkungen auf die betroffenen Kinder selbst. Dies könnte darauf zurückzuführen sein, dass Geschwister häufig unter Gefühlen von Angst und Unsicherheit sowie elterlicher Abwesenheit während der Krankenhausaufenthalte leiden, genau dann, wenn sie den elterlichen Trost besonders benötigen (Connor et al., 2005; Van Der Bom et al., 2011). Zusätzlich kann die emotionale Dauerbelastung der Eltern dazu führen, dass sich die

elterliche emotionale Verfügbarkeit in Form von Aufmerksamkeit und Zuneigung vermindert (Caris et al., 2018).

Faktoren, die mit psychosozialen Wohlbefinden assoziiert sind. In einer Studie berichteten Geschwister und Eltern, dass die Geschwister mit zunehmendem Alter eine schlechtere ‚Krankheitsanpassung‘ aufwiesen, was sich durch verminderte Kommunikation, Rückzug in Beziehungen, erhöhte Angst und geringerem Kontakt mit dem Geschwisterkind zeigte (Caris et al., 2018). In einer anderen Studie wurde festgestellt, dass Geschwister, die älter sind als das Kind mit dem AHF, sich stärker dafür verantwortlich fühlten, es zu beschützen (Menke, 1987). Eine mögliche Erklärung wäre, dass die Geschwister mit zunehmendem Alter ein besseres Verständnis für die Folgen der Erkrankungen entwickelten und gleichzeitig auch die Anzahl der belastenden Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF anstieg.

Eine Studie ergab, dass Schwestern doppelt so viele Betreuungsaufgaben übernahmen wie Brüder, wodurch sich auch ihre Freizeitaktivitäten signifikant verringerten (Williams et al., 1993). Allerdings hatten fast alle teilnehmenden Familien einen niedrigeren sozioökonomischen Status und mehrere Kinder. Die Ergebnisse gelten daher möglicherweise nicht für Geschwister aus Familien mit weniger Kindern und einem höheren sozioökonomischen Status (Williams et al., 1993). Außerdem wurde die Studie vor mehr als 25 Jahren auf den Philippinen durchgeführt, wo noch ein traditionelles Frauenbild vorherrschte (Lauser, 2008). Demzufolge ist fraglich, ob ein ähnliches Ergebnis heutzutage, in einer Gesellschaft mit einem weniger traditionellen Frauenbild, auftreten würde. Auch können finanzielle Schwierigkeiten zu einem höheren allgemeinen Stressniveau in einer Familie geführt haben, weil die finanziellen Mittel zur Abmilderung der negativen Auswirkungen einer chronischen Erkrankung, wie beispielsweise Kinderbetreuung, Haushaltshilfe, Nachhilfe etc., fehlten. Darüber hinaus war das Ausmaß des Rückgangs der Betreuung gesunder Geschwister bei Müttern von Kindern mit AHF signifikant größer als bei Kindern mit neurologischen Erkrankungen (Williams et al., 1993). Dies könnte eine Folge der häufigen Fütterungsschwierigkeiten von Kindern mit AHF sein, die viel Zeit in Anspruch nehmen (Clemente et al., 2001; de Man et al., 2021).

Eine weitere Studie ergab, dass Geschwister von Kindern mit sichtbaren Erkrankungen wie Kiefer-Gaumenspalte stärker sozial zurückgezogen waren als Geschwister von Kindern mit nicht sichtbaren Erkrankungen wie AHF, was darauf hindeutete, dass die Sichtbarkeit einer Erkrankung ein potenzieller Risikofaktor für niedriges psychosoziales Wohlbefinden sein kann (Lavigne & Ryan, 1979). Allerdings wurde die Studie von Lavigne und Ryan (1979) vor mehr als 40 Jahren durchgeführt, als die Techniken zur Behandlung von Erkrankungen wie Kiefer-Gaumenspalte noch nicht zufriedenstellend waren und ein höheres Maß an Stigmatisierung aufgrund einer solchen Erkrankung wahrscheinlicher war als heutzutage. Auch können AHF nicht per se als nicht sichtbar bezeichnet werden, da bei komplexen AHF eine bläuliche Verfärbung der Haut durch Sauerstoffmangel und eine deutlich wahrnehmbare Einschränkung der körperlichen Belastbarkeit sowie Operationsnarben weit verbreitet sind (Feltez et al., 2015; Horner et al., 2000).

Hinsichtlich der Komplexität der Erkrankung wurden uneinheitliche Ergebnisse gefunden. Wray und Maynard (2005) fanden heraus, dass eine höhere Komplexität des AHF positiv mit den negativen Auswirkungen der Erkrankung korreliert. Eine weitere Studie fand, dass doppelt so viele Eltern von Kindern mit unheilbaren AHF über Schwierigkeiten der Geschwister berichteten als solche mit simplen, korrigierbaren AHF (Apley et al., 1967). Andere Forscher konnten wiederum keinen Zusammenhang zwischen der Komplexität des AHF und psychischen Erkrankungen bei Geschwistern feststellen (Lavigne & Ryan, 1979). Zudem fand eine Studie heraus, dass Eltern gesunde Geschwister als ,verhaltensauffälliger' erlebten, wenn die Erkrankung weniger behandlungsintensiv war, obwohl die Eltern sich selbst als unaufmerksamer gegenüber den Geschwistern wahrnahmen, wenn die Behandlung des AHF zeitintensiver war (Janus & Goldberg, 1997). Diese Ergebnisse deuten darauf hin, dass Geschwister die meisten Verhaltensprobleme entweder in Familien mit Kindern mit komplexen AHF haben, oder in Familien, die sich durch ein sehr hohes Maß familiärer Konzentration auf den AHF, im Kontrast zu einer relativ milden Ausprägung der Erkrankung, auszeichnen. Diese ,Überanpassung' könnte zu einer schlechteren Akzeptanz der Situation durch die Geschwister führen (Janus und Goldberg, 1997). Eine weitere mögliche Erklärung ist ein größeres Streben der Geschwister nach Normalität, wenn die Erkrankung relativ mild ist. Da diese ,Normalität' dann dennoch unerreichbar ist, könnte wiederum zu einem erhöhten Frustrationsniveau führen (Janus & Goldberg, 1997).

Aufgrund der eingeschränkten statistischen Analysen vieler der eingeschlossenen Studien können keine kausalen Schlussfolgerungen zu Risikofaktoren eines verringerten psychosozialen Wohlbefindens oder einer verminderten LQ gezogen werden. Zudem fehlen Hinweise auf protektive Faktoren, wie sie üblicherweise in der Resilienzforschung zu finden sind, wie beispielsweise geringe Impulsivität, enge Beziehung zu mindestens einem Elternteil, intensive elterliche Betreuung, gute schulische Leistungen, eine starke Bindung an die besuchte Schule, ein positives Klassenklima und das Wohnen in einer nicht sozial benachteiligten Nachbarschaft (Werner, 2013). Da bis zu zwei Drittel der Geschwisterkinder keine Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens oder der Lebensqualität aufweisen, ist es wahrscheinlich, dass in diesen Familien Schutzfaktoren wirken. Um besser zu verstehen, welche Faktoren das psychosoziale Wohlbefinden und die Lebensqualität von Geschwistern in welcher Richtung beeinflussen, sollte die zukünftige Forschung sowohl Schutzfaktoren als auch Risikofaktoren berücksichtigen und statistische Methoden verwenden, die kausale Schlussfolgerungen zulassen, wie Regressionsanalysen, Varianzanalysen oder Pfadmodelle. Vorher-Nachher-Designs sind in diesem Bereich schwierig umzusetzen, da ein AHF erst kurz vor der Geburt vorhergesagt werden kann und es daher unmöglich ist, Geschwister vorher zu testen (Friedberg et al., 2009).

Interventionsstudien. In einer Interviewstudie von Redshaw und Wilson (2012) zum „Heart Beads Program“ berichteten Eltern über positive Auswirkungen auf gesunde Geschwister, wenn sie ihnen Aufmerksamkeit und Wertschätzung für ihre Gefühle und Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF entgegenbrachten. Dies ermöglichte den Geschwistern, eine aktive Rolle bei der Bewältigung ihrer

Situation einzunehmen, und reduzierte dadurch vermutlich vorherige Verhaltensprobleme. Dazu passend, könnten die im „CHIP-Family“ Programm vermittelten positiven Bewältigungsmechanismen der gesamten Familie geholfen haben, den AHF des Kindes in ihr tägliches Leben zu integrieren, was sich wiederum positiv auf die Geschwister ausgewirkt haben könnte (van der Mheen et al., 2019). Die Einbeziehung eines separaten Fragebogens für Geschwister hätte einen besseren Einblick in eine mögliche Verbesserung ihres psychosozialen Wohlbefindens durch die Intervention gegeben. Da bisher keine Interventionsstudien existieren, die direkt auf die Verbesserung des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ von Geschwistern von Kindern mit AHF abzielen, jedoch bis zu einem Drittel der Geschwister im psychosozialen Wohlbefinden und der LQ beeinträchtigt sind, sollten dringend Interventionen zur Verbesserung dieser Zielvariablen entwickelt werden.

**Stärken.** Nach vorliegendem Kenntnisstand ist dies die erste systematische Übersichtsarbeit, die umfassend erforscht hat, wie sich die Häufigkeit und Art der Beeinträchtigungen des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF verteilen, welche Faktoren damit assoziiert sind und welche Interventionsstudien Geschwister von Kindern mit AHF miteinbeziehen.

Eine weitere Stärke ist der Qualitätsstandard der Arbeit, der die höchsten methodischen Anforderungen in den Bereichen Studienregistrierung (PROSPERO), Studienauswahl, Datenerhebung (Covidence; Veritas Health Innovation, 2016), Qualitätsbeurteilung der eingeschlossenen Studien (AXIS-tool; Downes et al., 2016) und Reporting (PRISMA-checklist; Moher et al., 2009) erfüllt.

**Limitationen.** Zu den Einschränkungen gehören Inkonsistenzen im Design und in den Ergebnisvariablen der untersuchten Studien, die die Vergleichbarkeit erschweren und eine Meta-Analyse unmöglich machen.

Die Übertragbarkeit auf heutige Geschwister von Kindern mit AHF ist aufgrund des hohen Alters (> 25 Jahre) von fünf der eingeschlossenen Studien (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997; Lavigne & Ryan, 1979; Menke, 1987; Williams et al., 1993) und in Anbetracht der stark verbesserten Behandlungsmöglichkeiten sowie der veränderten Familien- und Umweltfaktoren, wie beispielsweise der Notwendigkeit der Erwerbstätigkeit beider Elternteile, stark eingeschränkt.

Unterschiede zwischen den Gesundheitssystemen der neun Herkunftsländer der Studien schränken die Verallgemeinerbarkeit der Ergebnisse weiter ein. AHF haben in Ländern mit staatlicher Krankenversicherung und einfachem Zugang zu medizinischer Maximalversorgung, wie z. B. in den Niederlanden (Van de Ven & Schut, 2008), andere soziale und finanzielle Auswirkungen auf Familien und Geschwister als in Ländern, in denen nur wenige, wohlhabende Menschen Zugang zur Gesundheitsversorgung haben, wie beispielsweise in Pakistan (Kurji et al., 2016).

**Implikationen für zukünftige Forschung.** Qualitative Interviewstudien könnten helfen, die bisher unerforschten Erfahrungen und Unterstützungsbedarfe heutiger Geschwister von Kindern mit AHF zu ermitteln. Basierend auf deren Ergebnissen und der Ergebnisse dieses systematischen Reviews sind



kontrollierte Querschnittsstudien notwendig, um den Einfluss des AHF auf das psychosoziale Wohlbefinden und die LQ der Geschwister besser zu verstehen. Durch die Betonung der Geschwisterperspektive und den Miteinbezug elterlicher Perspektiven können eventuelle elterliche Überschätzung der Schwierigkeiten der Geschwister sowie eine mögliche Unterschätzung der Belastungen durch die Geschwister selbst vermieden werden (Caris et al., 2018). Um die Entwicklung einer maßgeschneiderten Intervention für Geschwister von Kindern mit AHF zu ermöglichen, ist es außerdem entscheidend, genau abzuschätzen, welche Geschwister besonders gefährdet sind, Einschränkungen in ihrer GesamtlQ zu erfahren. Mögliche, in dieser Arbeit identifizierte soziodemografische Risikofaktoren, wie das Alter der Geschwister, ihre Position in der Geburtenreihenfolge, ihr Geschlecht sowie krankheitsbezogene Faktoren wie die Sichtbarkeit und Komplexität der Erkrankung, sollten eingehender untersucht werden. Darüber hinaus sollten auch Ressourcen und Coping-Strategien der Geschwister exploriert werden, da sich daraus potentielle Schutzfaktoren ergeben könnten, die für die Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit AHF und die Entwicklung einer Intervention zur Verbesserung ihrer Situation wichtige Implikationen bergen könnten.

Implikationen für die Praxis. Ärztliche, pflegende und psychosoziale Mitarbeitende im Gesundheitswesen sollten die oben genannten Ergebnisse beim Umgang mit Geschwistern von Kindern mit AHF und ihren Familien berücksichtigen. Sie sollten den Familien und dem Umfeld die emotionalen Herausforderungen bewusstmachen, mit denen die Geschwister von Kindern mit AHF konfrontiert sind, um zu verhindern, dass sie zu sogenannten ,Schattenkindern' werden. Außerdem sollten sie von Familien lernen, die besser an die widrigen Bedingungen angepasst sind und deren Strategien weitergeben. So könnten Mitarbeitende im Gesundheitswesen und Ehrenamtliche die Eltern zu regelmäßiger offener Kommunikation untereinander und mit den Geschwistern über ihre Gefühle und Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF ermutigen, was den Geschwistern Aufmerksamkeit und Wertschätzung vermittelt und ihnen ermöglicht eine aktive Rolle bei der Bewältigung ihrer Situation und der Verdeutlichung ihrer Bedürfnisse einzunehmen. Dies könnten in der Beratung im ambulanten und stationären Bereich und in Selbsthilfegruppen umgesetzt werden.

Schlussfolgerungen. Das psychosoziale Wohlbefinden und die LQ waren bei mehr als einem Drittel der Geschwister von Kindern mit AHF beeinträchtigt. Die negativen Auswirkungen der Erkrankung waren bei Geschwistern von Kindern mit AHF am stärksten, und sie bewerteten ihre LQ niedriger als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen wie beispielsweise Krebs und Mukoviszidose. Mit Beeinträchtigungen des psychosozialen Wohlbefindens assoziiert waren ein höheres Alter der Geschwister, eine höhere Position in der Geschwisterreihenfolge, weibliches Geschlecht, ein niedriger sozioökonomischer Status der Familie, die Sichtbarkeit der Erkrankung, vorherige Fehlgeburten oder der Verlust eines Geschwisterkindes in der Familie und eine höhere Komplexität der AHF, auch wenn bei der Komplexität der AHF die Datenlage uneindeutig war. Künftige Forschungsarbeiten sollten

sich daher auf die weitere qualitative und quantitative Erforschung der Beeinträchtigungen des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ der Geschwister von Kindern mit AHF und mögliche Einflussfaktoren dieser Konstrukte konzentrieren, um die Entwicklung von Maßnahmen zur Verbesserung der Situation von Geschwistern von Kindern mit AHF voranzutreiben. Zudem sollten Mitarbeitende im Gesundheitswesen und Selbsthilfvereine die oben genannten Ergebnisse im Umgang mit Geschwistern von Kindern mit AHF und ihren Eltern berücksichtigen. Sie könnten Aufklärungsarbeit in Form von Beratung oder Workshops zur Sensibilisierung der Eltern sowie Bildungsträgern wie Schulen und in Kindertagesstätten durchführen, Austausch unter Betroffenen ermöglichen und diese nach ihren Bedürfnissen fragen.

## **7.2 BEITRAG II: Eine qualitative Interviewstudie mit Eltern-Geschwister-Dyaden zur Erforschung der mit der Diagnose verbundenen Erfahrungen und des Unterstützungsbedarfs von Geschwistern von Kindern mit angeborenen Herzfehlern**

In diesem Kapitel wird der zweite Forschungsbeitrag, eine qualitative Interviewstudie mit Eltern-Geschwister-Paaren zur Erforschung der Erfahrungen und des Unterstützungsbedarfs von Geschwistern von Kindern mit angeborenen Herzfehlern (Schamong et al., 2022 subm), mit Blick auf seine Zielsetzung, seine Methodik, seine Ergebnisse, einer kritischen Diskussion und der daraus gezogenen Schlussfolgerungen vorgestellt. Das Manuskript des eingereichten Zeitschriftenartikels und das zugehörige supplementary material sind Anhang B in Kapitel 10 zu entnehmen.

### **7.2.1 Hintergrund und Studienziele**

Trotz der großen Anzahl von Betroffenen (Liu et al., 2011) gibt es nur wenig Forschung über Geschwister von Kindern mit AHF (Parker et al., 2020; Schamong et al., 2021). Etwa ein Drittel der Geschwister von Kindern mit AHF leidet unter Beeinträchtigungen der LQ (Schamong et al., 2021), die sich negativ auf ihre schulischen Leistungen, ihr Verhalten und ihre Gesundheit auswirken (Parker et al., 2020). Außerdem schätzen Geschwister von Kindern mit AHF ( $n = 21$ ) in einer Studie mit kleinen Stichproben ihre LQ schlechter ein (Havermans et al., 2015) und machen sich mehr Sorgen um ihre Geschwister als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen wie Krebs oder Typ-1-Diabetes (Menke, 1987). Azhar und Kollegen (2016) fanden zudem heraus, dass die psychologischen Auswirkungen der AHF auf die Geschwister fast genauso groß waren wie die Auswirkungen auf die Kinder mit dem AHF selbst.

Faktoren, die negativ mit dem psychosozialen Wohlbefinden der Geschwister assoziiert waren, waren ausschließlich soziodemografischer Natur, wie beispielsweise weibliches Geschlecht oder die Sichtbarkeit der Erkrankung (Moon et al., 2021; Schamong et al., 2021). Über die Qualität der negativen Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit der Diagnose, wie ihre Sorgen und Belastungen, ist wenig bekannt, obwohl sich diese ebenfalls auf ihre LQ (siehe Begriffsdefinition, Kapitel 3)

auswirken könnten. In einer Interviewstudie von Bichard und Kollegen (2022) wurden Erfahrungen von Geschwistern von Kindern mit AHF während der Corona-Pandemie untersucht und ein verstärkter Familienzusammenhalt als positive Konsequenz der AHF-Diagnose eines Geschwisterkindes identifiziert. Darüber hinaus wurden keine weiteren positiven Auswirkungen von AHF oder Bewältigungsmechanismen von Geschwistern im Umgang mit AHF identifiziert, obwohl diese Aspekte mitverantwortlich sein könnten, dass die LQ von zwei Dritteln der Geschwister von Kindern mit AHF unbeeinträchtigt blieb (Schamong et al., 2021).

Bislang wurden zwei Interventionsstudien identifiziert, die Geschwister von Kindern mit AHF miteinbezogen (Van der Mheen et al., 2019) bzw. ihre Perspektive berücksichtigten (Redshaw & Wilson, 2012), ohne allerdings direkt auf deren Unterstützung abzielen. Auch wurde bisher nicht untersucht, ob Geschwister von Kindern mit AHF sich überhaupt für die Teilnahme an einer unterstützenden Intervention interessieren und wenn ja, welche Art von Unterstützung sie sich wünschen (Schamong et al., 2021).

Mit quantitativen Ansätzen wurden Erfahrungen, die mit der AHF-Diagnose eines Geschwisterkindes zusammenhängen, somit nicht ausreichend erforscht. Darüber hinaus wurde das Interesse der Geschwister an einer unterstützenden Intervention bisher nicht exploriert, ebenso wenig wie die Informationen, die für die Entwicklung einer solchen Intervention erforderlich sind.

Studienziele. Ziel der Studie ist, (i) die wahrgenommenen negativen und positiven Erfahrungen von Geschwistern von Kindern mit AHF im Zusammenhang mit der Diagnose zu erforschen und (ii) das Interesse der Geschwister an einer unterstützenden Intervention auszuloten und dabei Schlüsselthemen und kontextuelle Bedingungen für eine solche Intervention durch Interviews mit Geschwister-Eltern-Dyaden zu identifizieren.

### **7.2.2 Methodik**

Das Studienprotokoll wurde im Deutschen Register für klinische Studien registriert (ID: DRKS00025031; <https://drks.de/search/de/trial/DRKS00025031>) und von der Ethikkommission der Medizinischen Fakultät der Universität zu Köln genehmigt (Nr. 21-1195). Die Berichterstattung basiert auf den konsolidierten Kriterien für qualitative Studien (aus dem Englischen; consolidated criteria for qualitative studies; COREQ; Tong et al., 2007), welche in Kapitel 10, im Anhang B, in Supplementary Table B1, enthalten sind.

Einschluss- und Ausschlusskriterien. Die Zielpopulation waren Geschwister im Alter von 10 bis 21 Jahren. Um mögliche altersbedingte Unterschiede zu erforschen, wurden die Teilnehmenden entsprechend ihrer Entwicklungsstufe in drei Gruppen eingeteilt: Vorpubertät (10 bis 13 Jahre), frühe Adoleszenz (14 bis 17 Jahre) und späte Adoleszenz (18 bis 21 Jahre; Oerter & Dreher, 2008). Pro Geschwisterkind nahm zusätzlich je ein Elternteil teil, da Caris und Kollegen (2018) festgestellt hatten, dass Eltern die Belastungen der Geschwister durch den AHF höher bewerteten als die Geschwister selbst. Durch

den Einbezug beider Perspektiven könnte einer eventuellen elterlichen Überschätzung oder Unterschätzung der Belastungen durch die Geschwister entgegengewirkt werden. Darüber hinaus haben Eltern oft Einblicke in die Sorgen und Bedürfnisse ihrer Kinder (Medeiros et al., 2016). Alle Teilnehmenden mussten zudem über gute Deutschkenntnisse verfügen.

Rekrutierung von Teilnehmenden. Die Teilnehmenden wurden über Online-Einladungen auf den Social-Media Seiten der gemeinnützigen Vereine „Bundesverband Herzranke Kinder e.V.“ und „Herzkind e.V.“ rekrutiert. Die Vorgehensweise entsprach aufgrund der hochspezifischen Stichprobe einer willkürlichen Auswahl anhand der Zugänglichkeit der Teilnehmenden, einer sogenannten ‚Convenience Sampling-Strategie‘ (willkürliche Stichprobenauswahl). Für jede der drei Entwicklungsstufen (Oerter & Dreher, 2008) sollte eine annähernd gleiche Anzahl von Teilnehmern rekrutiert werden.

Die Interviews wurden direkt nach der Durchführung analysiert und die Rekrutierung von Teilnehmenden wurde gestoppt, als Moser und Korstjens (2018) zufolge eine inhaltliche Sättigung erreicht war. Dies war der Fall, wenn jeder inhaltliche Aspekt jeder Unterkategorie des Kategoriensystems mindestens einmal wiederholt wurde.

Durchführung der Interviews. Den Interessenten wurden zunächst altersentsprechende Informationsunterlagen zur Verfügung gestellt, die eine ausführliche Beschreibung des Projekts und Informationen über den Datenschutz enthielten. Wenn die Interessenten die Einschlusskriterien erfüllten und teilnehmen wollten, wurde ihre schriftliche Einwilligung eingeholt. Die Informationsunterlagen und Einwilligungserklärung für Geschwister im Alter von 14 bis 21 Jahren sind beispielhaft in Kapitel 10, im Anhang B als Supplementary Document B1, enthalten. Anschließend wurde ein Interviewtermin vereinbart. Aufgrund der Corona-Pandemie wurden die Interviews per Videoanruf durchgeführt (RED Medical Systems GmbH, 2021). Die Teilnehmenden waren während der Interviews allein im Raum.

Um ihre klinische Verantwortlichkeit von ihrer Rolle als Forscherin zu trennen, legte die Interviewerin A. S. vor Beginn der Interviews gegenüber den Teilnehmenden ihre Position und ihre Absichten als Forscherin offen (Bourke, 2014). Da ihr in den fünf Jahren auf ihrem Arbeitsplatz aufgefallen war, dass die Stimmen der Geschwister oft ungehört blieben, sah sie sich veranlasst, sich wissenschaftlich mit dem Thema zu befassen.

Kurzfragebögen, Interviewleitfaden und Beobachtungsbogen. Vor den Interviews füllten die Teilnehmenden Kurzfragebögen aus, die Angaben zu Geschlecht, Alter, Position in der Geburtsreihenfolge, Schulbesuch, beruflichem Status sowie evtl. erworbenem Bildungsabschluss (je nach Alter), AHF-Diagnose der Geschwister, wahrgenommene Sichtbarkeit der Erkrankung der Geschwister und wahrgenommene soziale Unterstützung enthielt. Die Eltern wurden zusätzlich zu früheren Fehlgeburten und dem Verlust eines Kindes in der Familie befragt. Je nach AHF-Diagnose wurde die Komplexität der Erkrankung der Geschwister in die Kategorien „simpel“, „moderat“ oder „komplex“ eingeteilt (siehe Tabelle 3 in Kapitel 4.3, eigene Darstellung modifiziert nach Warnes et al., 2001, Tabelle 4-6).

Für die vorliegende Studie wurde ein problemzentrierter Interview-Ansatz verwendet, der geeignet ist, wenn die Forschungsfrage konkret ist, es aber nur wenige Belege in der vorhandenen Literatur gibt (Witzel & Reiter, 2012). Der Interviewleitfaden für die Studie wurde auf Grundlage einer in der systematischen Übersichtsarbeit von Schamong und Kollegen (2021) identifizierten Forschungslücke entwickelt. Er enthält sechs Fragen bezüglich der Erfahrungen von Geschwistern von Kindern mit AHF im Zusammenhang mit der Diagnose, die die Sorgen, Belastungen, Bewältigungsmechanismen und wahrgenommene positive Auswirkungen der AHF auf die Geschwister adressieren. Auch der Unterstützungsbedarf der Geschwister wurde anhand von vier Fragen untersucht, die sich auf ihr Interesse an der Teilnahme an einer supportiven Intervention, mögliche Gründe für die Teilnahme, mögliche Themen von Interesse und die Rahmenbedingungen einer solchen Intervention bezogen.

Geschwistern und Eltern wurden die gleichen Fragen gestellt, aber die Eltern wurden gebeten, anzugeben, was die Geschwister aus ihrer Sicht empfanden und benötigten. Der Interviewleitfaden wurde am ersten Geschwister-Eltern-Paar getestet. Beobachtungsbögen wurden verwendet, um non-verbale und situative Aspekte der Interviews zu erfassen. Diese wurden direkt nach den Interviews ausgefüllt. Die Kurzfragebögen für Geschwister (Supplementary Document B2) und Eltern (Supplementary Document B2), der Interviewleitfaden (Supplementary Table B3) und der Beobachtungsbogen (Supplementary Table B3) befinden sich im Anhang B, im supplementary material von Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm).

Analyse der Daten. Es wurde eine qualitative Inhaltsanalyse durchgeführt, aus der deduktiv, auf Basis der Antworten auf die Interviewfragen, ein Kategoriensystem abgeleitet wurde (Mayring & Fenzl, 2019). Die Transkripte wurden mithilfe von MAXQDA, einem Programm zur Analyse qualitativer Daten, analysiert (VERBI Software, 2020).

Zunächst kodierte die Forscherin Y. F. die Transkripte der ersten drei Geschwisterinterviews. Die Forscherin A. S. kodierte die gleichen Transkripte und überprüfte die Nachvollziehbarkeit und Vollständigkeit der Kodierung. Auf der Grundlage dieses Verfahrens wurde ein vorläufiges Kategoriensystem erstellt. Anschließend kodierten Y. F. und A. S. die restlichen Transkripte, wobei sie nach jedem Transkript weitere Kategorien diskutierten und hinzufügten. Geringfügige Differenzen wurden durch Diskussion geklärt. Die Elterninterviews wurden auf die gleiche Weise ausgewertet.

### **7.2.3 Ergebnisse**

Zwischen August und Oktober 2021 wurden zehn Interviews mit Geschwister-Eltern-Paaren geführt, was zu einer Gesamtanzahl von 20 Interviews führte. Es wurde ein ungleiches Verhältnis von Brüdern ( $n = 2$ ; 20%) und Schwestern ( $n = 8$ ; 80%) und ein ungleiches Verhältnis von jüngeren ( $n = 2$ ; 20%) zu älteren ( $n = 8$ ; 80%) Geschwistern festgestellt. Der Schweregrad der AHF wurde anhand der Diagnosebezeichnung, der Klassifizierung von Warnes und Kollegen (2001) folgend, den Komplexitätsstufen simpel, moderat oder komplex zugeordnet (siehe Tabelle 3 in Kapitel 4.3, eigene Darstellung

modifiziert nach Warnes et al., 2001, Tabelle 4-6). Es meldeten sich keine Geschwister von Kindern mit simplen AHF auf unseren Aufruf zur Studie, daher nahmen lediglich Geschwister von Kindern mit moderaten ( $n = 4$ ; 40%) sowie komplexen AHF ( $n = 6$ ; 60%) teil.

Die Interviews dauerten zwischen 11 und 35 Minuten und die Teilnehmenden zeigten großes Interesse daran, ihre Erfahrungen zu schildern. Inhaltlich unterschieden sich die Antworten der Geschwister mit zunehmendem Alter nicht, wurden jedoch differenzierter, was sich in einer längeren Interviewdauer bei Geschwistern im Alter von 18 bis 21 Jahren ( $Mdn = 18.59$  min), verglichen mit Geschwistern im Alter von 10 bis 13 Jahren ( $Mdn = 14.30$  min) und 14 bis 17 Jahren ( $Mdn = 13.01$  min) widerspiegelte. Geschwister von Kindern mit komplexeren AHF äußerten ihre Sorgen und Belastungen umfangreicher als solche mit moderaten AHF ( $Mdn = 14.06$  min vs.  $13.06$  min). Den Beobachtungsbögen zufolge schienen jüngere Geschwister (10 bis 13 Jahre) während der Interviews nervöser als ältere Geschwister (14 bis 21 Jahre), was sich durch Kauen auf den Fingern und Wippen auf dem Stuhl äußerte (Kushki et al., 2013).

Das Kategoriensystem. Es ergab sich ein Kategoriensystem aus drei Hauptkategorien mit entsprechenden Unterkategorien, das in Tabelle 4 dargestellt ist. Darunter erfolgt die Aufzählung der von den Teilnehmenden genannten inhaltlichen Aspekte der Unterkategorien mit dazugehörigen Originalzitaten.

**Tabelle 4**

*Das Kategoriensystem – Beitrag II*

Hauptkategorien	Unterkategorien
Von den Teilnehmenden wahrgenommene negative Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF	Sorgen der Geschwister bezüglich des AHF Belastungen der Geschwister durch den AHF
Von den Teilnehmenden wahrgenommene positive Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF	Wahrgenommene positive Folgen des AHF Mechanismen der Geschwister zur Bewältigung des AHF
Unterstützungsbedarf der Geschwister von Kindern mit AHF	Interesse an einer unterstützenden Intervention Gründe für eine Teilnahme und Themen von Interesse Rahmenbedingungen einer unterstützenden Intervention

*Abkürzung.* AHF = angeborene Herzfehler. *Quelle.* Eigene Darstellung, modifiziert nach Schamong und Kollegen (2022 subm).

Von den Teilnehmenden wahrgenommene negative Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF. In den folgenden zwei Abschnitten werden die von den Teilnehmenden wahrgenommenen negativen Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF dargestellt.

*Sorgen der Geschwister bezüglich des AHF.* Die Geschwister fürchteten die Verschlechterung des Gesundheitszustands und den Tod des Kindes mit dem AHF.

*„Ich würde sagen, die größte Sorge ist, dass sich sein Gesundheitszustand schnell verschlechtern oder er sogar sterben könnte.“*

*(Nea, Schwester, 21 Jahre)*

Eine Teilnehmende hatte ihren Bruder aufgrund von Komplikationen bei einer Herztransplantation verloren, und die Geschwister von zwei Teilnehmenden erlitten aufgrund von Sauerstoffmangel während einer Operation bleibende Hirnschäden. Andere Geschwister äußerten Angst vor einem Krankenhausaufenthalt des Kindes mit AHF und waren sich nicht sicher, ob sie den Gesundheitszustand ihrer Geschwister richtig einschätzen konnten. Einige Geschwister hatten Angst, das Kind mit dem AHF mit Corona anzustecken und befürchteten, dass das Kind mit dem AHF von Gleichaltrigen ausgeschlossen oder beschämt werden könnte. Die Eltern benannten darüber hinaus die mögliche Angst der Geschwister vor dem Kummer der Eltern, falls das Kind mit dem AHF versterben würde.

*„Verlustängste, ganz klar der Tod. Alleine dazustehen. Darauf bezogen auch schon weitergedacht auf die Eltern ... dass die Eltern dann sehr darunter leiden würden, wenn das kranke Kind dann stirbt, und da die Sorge dahingehend da ist.“*

*(Neven, Vater, 40 Jahre)*

*Belastungen der Geschwister durch den AHF.* Geschwister berichteten von verringerter elterlicher Aufmerksamkeit und Unterstützung sowie den ständigen Sorgen der Eltern um das Kind mit dem AHF. Auch waren gemeinsame Familienaktivitäten eingeschränkt, wenn die Eltern das Kind mit dem AHF zu Behandlungen begleiteten. Die Angst vor einer Corona-Infektion veranlasste die Eltern zudem, den Geschwistern zu verbieten, sich mit Freunden zu treffen.

*„Wegen Corona würde ich sagen, dass ich mich oft mit meinen Eltern gestritten habe, weil ich wütend war, dass ich mich wegen meiner Schwester nicht mit meinen Freunden treffen konnte. Ich war also oft sehr, sehr wütend, aber gleichzeitig wusste ich auch, dass ich mich schuldig fühlen würde, wenn ich das täte und mich anstecken würde, und deshalb war das sehr schwer.“*

*(Sarah Ute, Schwester, 15 Jahre)*

Die von dem Kind mit AHF geäußerten Ängste und seine Fragen zum AHF belasteten die Geschwister zusätzlich. Schließlich gab eine Schwester an, dass sie sich durch verlängerte Familienmahlzeiten gestresst und gelangweilt fühlte, weil das Kind mit dem AHF Schwierigkeiten bei der Nahrungsaufnahme hatte. Die Eltern fügten hinzu, dass die Geschwister während der Krankenhausaufenthalte teilweise Aufgaben der Eltern übernahmen, und waren besorgt, dass die Geschwister unter Unverständnis und dem Verlust ihrer Routine leiden, oder sich während ihrer Abwesenheit hilflos fühlen könnten.

*„Und natürlich die lange Zeit, die die Eltern im Krankenhaus verbringen. Es ist auch eine schwierige Situation für ein kleines Kind, zu verstehen, warum die Dinge so sind.“*

*(Steff, Vater, 48 Jahre)*

Zudem beobachteten die Eltern Anzeichen von Entwicklungsverzögerungen oder Unreife bei den Geschwistern sowie negative Auswirkungen des AHF auf die Geschwisterbeziehung.

Von den Teilnehmenden wahrgenommene positive Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF. In den nächsten beiden Abschnitten werden die von den Teilnehmenden wahrgenommene positiven Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF präsentiert.

*Wahrgenommene positive Folgen des AHF.* Zu den wahrgenommenen positiven Folgen des AHF durch die Geschwister gehörten ein starker Zusammenhalt und tiefe Bindungen innerhalb der Familie. Des Weiteren Wertschätzung und Empathie gegenüber dem Kind mit dem AHF und Menschen mit chronischen Krankheiten generell.

*„Und... es ist mir wichtig, dass ich eine enge Beziehung zu meinem Bruder habe. Wir haben schon ein enges Verhältnis, und das hat sich durch die Herztransplantation noch vertieft.“*

*(Gudrun, Schwester, 19 Jahre)*

Auch berichteten die Geschwister von Wertschätzung der eigenen Gesundheit und persönlicher Reifung. Die Eltern ergänzten und betonten die vielfältigen persönlichen Stärken und Ressourcen der Geschwister und ihre Fähigkeit, im ‚Hier und Jetzt‘ zu leben, sowie die Fähigkeit, als Familie selbst die extremsten Situationen zu meistern.

*„Ein starkes Gefühl des Zusammenhalts und die Erkenntnis, dass man auch die extremsten Dinge meistern kann, dass man sie überhaupt als Familie meistern kann, und dass man auch sieht, wie man sie meistert.“*

*(Enea, Vater, 42 Jahre)*

*Mechanismen der Geschwister zur Bewältigung des AHF.* Gespräche mit Freunden und Familienmitgliedern über die Häufigkeit von AHF und die vielen betroffenen Geschwister sowie positive Erfahrungen mit erfolgreichen AHF-Behandlungen unterstützten die Geschwister bei der Bewältigung der Erkrankung.

*„Und was mir auch sehr geholfen hat, zum Beispiel mit der Herzklappe, war, von Anderen zu hören, die auch eine bekommen haben.“*

*(Marlene, Schwester, 21 Jahre)*

Ablenkung jeglicher Art wie Unterhaltung oder Lernen half den Geschwistern, besser mit dem AHF zurechtzukommen. Die Eltern ergänzten folgende Aspekte, die ihrer Meinung nach den Geschwistern den Umgang mit dem AHF erleichterten: Familienaktivitäten wie gemeinsame Ausflüge, Verständnis und Einfühlungsvermögen von anderen Betroffenen während Aktivitäten wie familienorientierter Rehabilitationsmaßnahmen für Familien von Kindern mit AHF, Anzeichen dafür, dass sich das Kind mit dem AHF altersentsprechend entwickelt, dass das Kind mit dem AHF dieselben Regeln befolgen muss wie seine Geschwister, Religion, Entlastung der Geschwister von häuslichen Pflichten und offene Kommunikation sowie den Einbezug der Geschwister in die Planung erforderlicher AHF-Behandlungen.

*„Offene Kommunikation innerhalb der Familie. Das Geschwisterkind sollte in die Kommunikation, Entscheidungen und Planungen einbezogen werden. Dass das Geschwisterkind auch das Gefühl hat, Teil des Ganzen zu sein, zum Beispiel, wenn ein Krankenhausaufenthalt geplant ist.“*

*(Manfred, Vater, 42 Jahre)*



Unterstützungsbedarf der Geschwister von Kindern mit AHF. Der von den Teilnehmenden wahrgenommene Unterstützungsbedarf der Geschwister, unterteilt nach ihrem Interesse an einer unterstützenden Intervention, möglichen Gründen für eine Teilnahme und Themen von Interesse sowie Rahmenbedingungen einer solchen Intervention werden in den folgenden drei Abschnitten aufgeführt.

*Interesse der Geschwister an einer unterstützenden Intervention.* Die meisten Geschwister waren an der Teilnahme an einer supportiven Intervention interessiert, hätten in der Vergangenheit gerne daran teilgenommen oder würden in herausfordernden Situationen daran teilnehmen, beispielsweise wenn das Kind mit AHF einen Herzkatheter oder eine Operation benötigt. Nur eine Teilnehmerin hatte generell kein Interesse an einer Teilnahme. Die Eltern beanstandeten zudem einen generellen Mangel an Unterstützungssystemen für Geschwister von Kindern mit AHF.

*Gründe für eine Teilnahme und Themen von Interesse.* Die Geschwister, bestätigt durch ihre Eltern, äußerten Interesse an Kommunikation mit und Empathie von gleichaltrigen Betroffenen, um sich verstanden und ,normalisiert' zu fühlen.

*„Mir gefällt der Gedanke, dass die Kinder erkennen: Ich bin mit so etwas nicht allein. Es gibt viele Menschen, die einen ähnlichen Alltag haben, oder die ähnliche Sorgen zu Hause kennen. Und das macht mich nicht zu etwas Besonderem, denn mir ist klar, dass es meinen Kindern in erster Linie darum geht, nicht aufzufallen.“*

*(Elsbeth, 48 Jahre)*

Zusätzlich wünschten sich die Geschwister Erklärungen zu den AHF-Diagnosen und Prognosen und Ratschläge zum Umgang mit ihren Sorgen und Belastungen.

*„Ich denke, um meine Angst zu lindern, könnte ich mir neues Wissen aneignen, zum Beispiel, wenn der Arzt oder die Ärztin... mich aufklären würde. Vielleicht eine Verbindung finden oder Leute finden, mit denen man... gut auskommt und die die Situation ein bisschen teilen.“*

*(Fritz, Bruder, 21 Jahre)*

Die Eltern schlugen außerdem vor, die Geschwister mit jungen Erwachsenen mit AHF zusammenzubringen, um positive Entwicklungsbeispiele zu geben, und die Geschwister darüber hinaus darin zu unterstützen, sich für ihre Bedürfnisse einzusetzen.

*Rahmenbedingungen einer unterstützenden Intervention.* Die Präferenzen hinsichtlich der Gruppenzusammensetzung variierten. So wünschten sich die Geschwister eine Intervention ausschließlich für Geschwister, für Geschwister und Kinder mit AHF, für Geschwister und Eltern und eine, die alle Familienmitglieder einschloss. Die präferierte Gruppengröße reichte von fünf bis 15 Teilnehmenden. Als Interventionsanleitende präferierten die Geschwister ärztliche Mitarbeitende, die medizinische Informationen liefern sollten, während die Eltern psychologische oder sozialpädagogische Mitarbeitende vorschlugen. Sowohl Geschwister als auch Eltern schlugen zwei oder drei Interventionsanleitende vor. In Bezug auf die Form der Unterstützung wünschten sich die meisten Geschwister und Eltern

persönliche Unterstützung oder abwechselnde Online- und Präsenzsitzungen sowie Unterstützung auf Abruf über digitale Anwendungen. Schließlich wurden Reitworkshops vorgeschlagen, wie sie bereits vom „Bundesverband Herzkranker Kinder e.V.“ für die Kinder mit AHF selbst angeboten werden und sich positiv auf das Selbstkonzept auswirken sollen (Kendall et al., 2014).

Einige Geschwister wünschten sich eine Kennenlernsitzung, andere bevorzugten entweder eine Sitzung alle ein bis zwei Wochen oder alle drei bis vier Wochen. Die Dauer der Sitzungen sollte laut den Geschwistern zwischen anderthalb und drei Stunden betragen, angepasst an die Bedürfnisse der Teilnehmenden. Die Eltern schlugen hingegen eine Dauer von einigen Stunden bis hin zu einem ganzen Tag vor. Bezüglich der Gesamtdauer der Intervention variierten die Antworten stark unter Geschwistern und Eltern und reichten von drei bis vier Sitzungen, einem Wochenende, einer Woche, regelmäßigen Treffen über einen Zeitraum von vier Monaten bis hin zu drei Jahren.

#### **7.2.4 Diskussion**

Die vorliegende Studie ist die erste, die einen Einblick in die mit der Diagnose verbundenen Erfahrungen deutscher Geschwister von Kindern mit AHF gibt. Sie umfasst die von den Geschwistern wahrgenommenen negativen Erfahrungen im Zusammenhang mit der Erkrankung, wie ihre Sorgen und Belastungen, und zugleich die wahrgenommenen positiven Erfahrungen hinsichtlich der Erkrankung, wie einen starken Familienzusammenhalt und die erfolgreich angewendeten Bewältigungsmechanismen der Geschwister. Darüber hinaus wird das große Interesse der Geschwister an einer unterstützenden Intervention deutlich, die Themen wie Empathie von und Unterstützung durch gleichaltrige Betroffene, medizinische Informationen über AHF und präferierte Rahmenbedingungen umfasst. Zusätzlich wurde die Wahrnehmung der Eltern bezüglich dieser Aspekte berücksichtigt und in Übereinstimmung mit einer vorherigen Studie festgestellt, dass sich die Wahrnehmungen von Geschwistern und Eltern unterscheiden (Caris et al., 2018). Dies wird im Folgenden differenziert dargestellt.

Von den Teilnehmenden wahrgenommene negative Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF. Die Geschwister befürchteten im Allgemeinen ein Fortschreiten der Erkrankung, bis hin zum Tode des Kindes mit dem AHF. In dem Bewusstsein, dass moderate und komplexe AHF nicht vollständig heilbar sind (Abdurrahman, 2023; Bhatt et al., 2015), leben Familien in ständiger Sorge, dass sich eine akut lebensbedrohliche Krise, wie beispielsweise eine Endokarditis, entwickeln könnte (Cahill et al., 2019). Zwei Geschwister von Teilnehmenden hatten aufgrund von Sauerstoffmangel während einer Operation einen irreversiblen Hirnschaden erlitten, und ein Geschwisterkind war aufgrund von Komplikationen nach einer Herztransplantation verstorben. Das Antizipieren oder Erleben solcher Situationen kann emotional überwältigend sein und die psychologischen Grundbedürfnisse der Geschwister nach Sicherheit und Kontrolle massiv bedrohen (Holderman, 2017; Long et al., 2015), was auch Studien zu Geschwistern mit anderen chronischen Erkrankungen bestätigen (Sloper,

2000; Weems & Overstreet, 2008). Auch haben Kinder mit moderaten sowie komplexen AHF ein deutlich erhöhtes Risiko für Entwicklungsstörungen, die sich negativ auf das Verhalten, die psychosozialen Funktionen, die schulischen Leistungen und die LQ auswirken (Hövels-Gürich & Latal, 2021). Diese Auswirkungen könnten erklären, warum Geschwister befürchten, das Kind mit dem AHF könnte ausgeschlossen oder beschämt werden.

Zusätzlich sind Eltern von Kindern mit moderaten oder komplexen AHF häufiger wegen Behandlungen abwesend als die von Kindern mit simplen AHF (Biber et al., 2019). Sie leiden zudem vermehrt unter Ängsten oder Depressionen (Woolf-King et al., 2017), was nachvollziehbar macht, dass die Teilnehmenden, die nur Geschwister mit moderaten oder komplexen AHF hatten, angaben, dass die ständigen Sorgen ihrer Eltern sie belasteten. Dass die Eltern die sozialen Kontakte der Geschwister während der Corona-Pandemie einschränkten, war zwar sowohl angemessen als auch nachvollziehbar im Sinne des Schutzes der vulnerablen Kinder mit AHF vor Ansteckung, wirkte sich jedoch besonders negativ auf die Geschwister aus, da somit genau die Aktivitäten unterbunden wurden, die den Geschwistern bei der Bewältigung des AHF halfen. Dies wurde zudem durch die Ergebnisse der Arbeit von Bichard und Kollegen (2022) bestätigt. Da die Geschwister besonders unter dem Verlust von elterlicher Aufmerksamkeit und Unterstützung sowie verminderten Familienaktivitäten infolge von Krankenhausaufenthalten belastet waren, nimmt der ‚Peer-Kontakt‘ (Kontakt zu gleichaltrigen Betroffenen) in diesem Kontext einen besonderen Stellenwert als protektiver Faktor ein, was auch Studien und Übersichtsartikel zu Geschwistern von Kindern mit Krebs bestätigen (Sloper, 2000; Wawrzynski et al., 2021). Zusätzlich ist jedoch anzumerken, dass die Belastungen bei den meisten Geschwistern von Kindern mit Krebs, vermutlich aufgrund der hohen Heilungsraten von bis zu 80% (Rodriguez-Galindo et al., 2015), nach 18 Monaten nicht mehr nachweisbar waren (Sloper, 2000). Schließlich gab eine Schwester an, dass sie die verlängerten Familienmahlzeiten belasteten und langweilten. Hier wird deutlich, dass Fütterungs- und Essprobleme, die ein häufiges Phänomen bei Kindern mit AHF sind und auch eine große Belastung für die Eltern darstellten, zu einer unangenehmen Atmosphäre in Situationen führen können, die die Familie eigentlich näher zusammenbringen sollte (Clemente et al., 2001; de Man et al., 2021).

Von den Teilnehmenden wahrgenommene positive Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF. Als positive Folgen des AHF nannten die Geschwister einen starken Familienzusammenhalt, Empathie und persönliches Wachstum. Diese Ergebnisse decken sich mit anderen Studien über Geschwister von Kindern mit AHF (Bichard et al., 2022) und anderen chronischen Erkrankungen (Niinomi & Fukui, 2022; Sloper, 2000). Die Eltern betonten zudem besonders die vielfältigen persönlichen Ressourcen und Kompetenzen der Geschwister, wie gute Gesundheit, emotionale Stärke und Achtsamkeit. Die Bewältigung der Erkrankung wurde durch Ablenkungen wie Kontakte zu gleichaltrigen Betroffenen, familiäre Unterstützung, offene Kommunikation und Informationen über AHF und ihre hohe Prävalenz erleichtert, wodurch sich die Geschwister möglicherweise ‚weniger allein‘ fühlten. Außerdem könnten Berichte über erfolgreiche AHF-Behandlungen das Vertrauen der Geschwister in

die aktuellen Behandlungsmöglichkeiten gestärkt haben. Aus Sicht der Eltern halfen zudem gemeinsame Familienaktivitäten wie Ausflüge, familienorientierte Rehabilitationsprogramme und die Empathie betroffener Gleichaltriger den Geschwistern bei der Bewältigung der Erkrankung. Darüber hinaus erleichterte den Eltern zufolge die Entlastung der Geschwister von Aufgaben im Zusammenhang mit dem AHF, wie vermehrte Hausarbeit während eines Krankenhausaufenthalts und der Einbezug der Geschwister in die Planung zukünftiger Krankenhausaufenthalte, die Bewältigung der Situation. All diese Aspekte decken sich mit Ergebnissen von Studien über Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen, wie beispielsweise Krebs (Feriante et al., 2022; Hartling et al., 2014; Sloper, 2000). Des Weiteren halfen klassische Resilienzfaktoren wie Stabilität in Form von verlässlichen Beziehungen, einem verlässlichen Umfeld, Kommunikations-, Problemlösungs- und Planungsfähigkeiten sowie ein daraus erwachsenes Selbstvertrauen (Werner, 2013), selbst die schwierigsten Situationen meistern zu können.

Unterstützungsbedarf der Geschwister von Kindern mit AHF. Die Geschwister zeigten großes Interesse an der Teilnahme an einer auf ihre Bedarfe zugeschnittenen Unterstützungsmaßnahme. Obwohl es bisher keine Intervention gibt, die direkt auf Geschwister von Kindern mit AHF abzielt, wurden sie bisher in eine Intervention direkt miteinbezogen und in einer weiteren wurden zumindest ihre Belange gehört (Redshaw & Wilson, 2012; van der Mheen et al., 2019). Eine der Studien ergab positive Auswirkungen auf gesunde Geschwister infolge elterlicher Aufmerksamkeit und Empathie durch Gespräche über deren Gefühle und Erfahrungen in Zusammenhang mit dem AHF und ermöglichte es den Geschwistern damit, eine aktive Rolle bei der Bewältigung ihrer Situation einzunehmen (Redshaw & Wilson, 2012). In der anderen Studie wurde den Geschwistern, durch direkte Teilnahme an einem Workshop für Familien von Kindern mit AHF, Unterstützung in Form von Übungen zur Verbesserung ihres Selbstwertgefühls, ihrer Emotionsregulation, ihrer Problemlösungsfähigkeiten und positivem Denken bereitgestellt (van der Mheen et al., 2019). In Übereinstimmung mit diesen Studien, den vorliegenden Ergebnissen zu den erfolgreich angewendeten Bewältigungsmechanismen der Geschwister und anderen Studien über die Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit AHF und anderen chronischen Erkrankungen (Bichard et al., 2022; Feriante et al., 2022; Hartling et al., 2014; Sloper, 2000; Vella Gera et al., 2021), sollten künftige Interventionen Möglichkeiten für eine offene Kommunikation von Geschwistern mit betroffenen Gleichaltrigen und ihren Eltern bieten, um ihre Gefühle zu validieren und somit zu ,normalisieren'. Geschwister sollten die Gelegenheit erhalten, ihre Sorgen, Belastungen und Bewältigungsstrategien zu teilen, um Empathie zu erfahren und Anregungen für einen funktionaleren Umgang mit dem AHF zu erhalten und auch anderen Betroffenen ermöglichen, von ihnen zu lernen. Eltern sollten zudem darin geschult werden, wie sie die Geschwister unterstützen können, indem sie mit ihnen offen über den AHF kommunizieren, Empathie zeigen und die Geschwister ermutigen, sich für ihre Bedürfnisse einzusetzen. Dies sei in diesem Rahmen betont, weil die Ergebnisse der vorliegenden Studie, unterstützt durch die Forschung von Caris und Kollegen (2018) zeigen,

dass die Wahrnehmung von Geschwistern und Eltern sich unterscheiden. Der deutschsprachige Workshop „Modulares Schulungsprogramm für chronisch kranke Kinder und Jugendliche sowie deren Familien (ModuS)“ vermittelt Krankheitswissen und Bewältigungsstrategien, wie die Stärkung des Selbstwertgefühls, um den Stress von Geschwistern chronisch kranker Kinder zu reduzieren, während gleichzeitig die Eltern für die Bedürfnisse der Geschwister sensibilisiert werden und Übungen durchführen, um potenzielle Unterstützer und eigene Stärken und Ressourcen zu aktivieren (Ernst et al., 2020; Ernst & Szczepanski, 2017). Dieser Workshop wurde hinsichtlich seiner positiven Auswirkungen auf die LQ der Geschwister evaluiert und könnte als Modell dienen, welches um diejenigen AHF-spezifische Themen erweitert werden könnte, die in dieser Studie identifiziert wurden. Beispielsweise im Hinblick auf medizinische Informationen über AHF und insbesondere über die sich ständig verbessernden medizinischen Behandlungsmöglichkeiten und Prognosen (Su et al., 2023), um die Ängste der Geschwister vor einer Verschlechterung des Gesundheitszustands des Kindes mit dem AHF, oder sogar vor dessen Tod zu verringern (Feriante et al., 2022). In Kombination mit diesen medizinischen Informationen könnte der elterliche Vorschlag, einen Erwachsenen mit AHF einzuladen, der sich in einem stabilen Gesundheitszustand befindet, ein ermutigendes Beispiel sein und den Geschwistern eine positive Zukunftsperspektive des Kindes mit dem AHF bieten.

Die Ergebnisse in Bezug auf die Rahmenbedingungen einer potenziellen Intervention sind sehr unterschiedlich, bieten aber eine wertvolle Vorlage für eine quantitative Untersuchung der Forschungsfrage, welche Bedingungen den Bedürfnissen der meisten Geschwister von Kindern mit AHF entsprechen.

Stärken. Dies ist die erste qualitative Studie, die einen Einblick in die mit der Diagnose verbundenen Erfahrungen deutscher Geschwister von Kindern mit AHF gibt. Zudem offenbart sie das große Interesse der Geschwister an einer unterstützenden Intervention und liefert wichtige Implikationen für Themen und Rahmenbedingungen zukünftiger Interventionen sowie Beratung zur Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit AHF und zukünftiger Forschung auf diesem Gebiet. Eine weitere Stärke dieser Studie ist der hohe Qualitätsstandard, der die höchsten methodischen Anforderungen bei der Studienregistrierung, Datenerfassung und -analyse erfüllt (Tong et al., 2007).

Limitationen. Das ungleiche Geschlechterverhältnis und das unausgewogene Verhältnis von älteren zu jüngeren Geschwistern limitiert die Generalisierbarkeit der Ergebnisse, da die vorherige systematische Übersichtsarbeit einen Zusammenhang zwischen Alter, Geschlecht und LQ von Geschwistern von Kindern mit AHF nahelegt (Schamong et al., 2021). Zudem wollten die Eltern in der Studie keine Angaben zu ihrem Einkommen machen, sodass die Auswirkung des sozioökonomischen Status auf die Studienergebnisse unklar bleibt. Weiterhin nahmen nur Geschwister von Kindern mit moderaten oder komplexen AHF teil. Dies ist vermutlich auf die nicht zufällige, sondern willkürliche Stichprobenauswahl zurückzuführen, da simple AHF im Gegensatz zu moderaten und komplexen AHF eine weniger intensive Behandlung erfordern und häufig durch einen Eingriff korrigiert werden können (Mandalenakis et al.,

2020), wie in Kapitel 4.4 erläutert. Folglich könnten die Geschwister von Kindern mit simplen AHF im Sinne eines ‚Selektions-Bias‘ weniger motiviert gewesen sein, an einer solchen Studie teilzunehmen.

Geschwister von Kindern, die aufgrund von Sauerstoffmangel während der Operation bleibende Schäden erlitten oder gar verstarben, wurden nicht ausgeschlossen, da dies eine mögliche, wenn auch seltene Folge von AHF-Behandlungen darstellt (Barkhuizen et al., 2021; McQuillen et al., 2007). Diese Erfahrungen wurden in der vorliegenden Studie miteinbezogen, da qualitative Studien keinen Anspruch auf repräsentative Ergebnisse erheben, sondern die unterschiedlichen Perspektiven Teilnehmender auf ein bestimmtes Thema erfassen, um Einblicke in Phänomene zu gewinnen und Ansatzpunkte für deren quantitative Untersuchung zu liefern (Hammarberg et al., 2016). Dass die Erfahrungen von Eltern und Geschwister unterschiedlich sind, sollte zudem bei der Interpretation der Ergebnisse und der Ableitung von Implikationen für die Praxis und für künftige Forschung weiter berücksichtigt werden.

Während der Interviews könnten jüngere Geschwister aufgrund des sensiblen Charakters des Themas und der Anwesenheit einer erwachsenen Interviewerin besonders nervös gewesen sein (Witzel & Reiter, 2012). Die Interviewerin versuchte zwar, ihre klinischen und forscherschen Aufgaben zu trennen, indem sie den Teilnehmenden im Vorfeld ihre Intention als Forschende erläuterte, dennoch bleiben ihre Positionalität und die Auswirkungen dieser auf die Aussagen der Teilnehmenden sowie ihre Interpretation dieser Aussagen potenzielle Einflussfaktoren (Bourke, 2014). So ist es denkbar, dass Teilnehmende negative Aussagen, die sie als sozial unerwünscht erachteten, aus Angst vor negativer Bewertung oder Konsequenzen zurückhielten. Andererseits ist es auch möglich, dass die Teilnehmenden die einmalige Gelegenheit schätzten, dass sich eine unbeteiligte Person für ihre Belange interessiert, die sonst oft ungehört blieben (Bourke, 2014).

Implikationen für zukünftige Forschung. Wie sich die Sorgen und Belastungen der Geschwister in einer größeren Stichprobe verteilen würden, bleibt unklar. Dies könnte jedoch für die Entwicklung einer zukünftigen Intervention von Bedeutung sein, da diese Themen beinhalten sollte, die den größtmöglichen Anteil der Geschwister von Kindern mit AHF abholen. Welche der Probleme spezifisch für AHF sind, ist noch unbekannt und unterstreicht die Notwendigkeit eines Vergleichs mit Geschwistern von Kindern mit anderen chronischen Krankheiten. Darüber hinaus könnten die Sorgen und Belastungen der Geschwister Ansatzpunkte für künftige Interventionen darstellen sowie die Identifikation von Geschwistern mit erhöhtem Unterstützungsbedarf ermöglichen. Die positiven Folgen der AHF hingegen stellen Ressourcen der Geschwister dar und könnten, wie die Stärkung bereits bestehender Bewältigungsmechanismen der Geschwister, zentrale Elemente künftiger Interventionen darstellen.

Implikationen für die Praxis. Mitarbeitende im Bereich Kinderkardiologie sollten die gewonnenen Ergebnisse berücksichtigen und sich auch um Geschwister kümmern, insbesondere um die von Kindern mit moderaten und komplexen AHF (Moon et al., 2021; Schamong et al., 2021). Psychologische und sozialpädagogische Mitarbeitende könnten Geschwistern ermöglichen, über ihre Sorgen und Belastun-

gen zu sprechen und gemeinsam mit ihnen Unterstützungsmöglichkeiten entwickeln, indem sie beispielsweise mithilfe von Selbsthilfevereinen den Kontakt zu betroffenen Gleichaltrigen herstellen. Um die LQ der Geschwister zu erhöhen und das Risiko für spätere psychische Erkrankungen zu verringern (Kessler und Wang, 2008), sollte den Eltern geraten werden, die natürlichen Bewältigungsmechanismen der Geschwister zu unterstützen, indem sie Gelegenheiten für eine offene Kommunikation über AHF innerhalb der Familie schaffen und die Geschwister in ihren gesundheitlichen und schulischen Belangen sowie bei ihren sozialen Aktivitäten, wie Treffen mit Freunden und Sport, unterstützen. Um negative Auswirkungen einer belasteten Geschwisterbeziehung auf die persönliche Entwicklung, künftige Beziehungen und das psychische Funktionieren zu vermeiden (Moon et al., 2021), sollten die Eltern dafür sensibilisiert werden, dass Geschwister in die Planung von AHF-Behandlungen, wie anstehende Krankenhausaufenthalte, einbezogen werden müssen und in diesen schwierigen Zeiten besondere Aufmerksamkeit und Unterstützung benötigen. Hierzu könnten weitere Familienmitglieder des Kindes mit dem AHF sowie ehrenamtliche Familienhelfer (Kinderhospizdienste, 2021; Thomas et al., 2023) stärker in die Betreuung und stationäre Begleitung einbezogen werden. Darüber hinaus sollte den Eltern geraten werden, ihre Kinder so gleichwertig wie möglich zu behandeln, sodass für alle gleiche Regeln gelten (Ahn und Lee, 2018). Schließlich sollten Ärzte und Pflegekräfte die Geschwister einbeziehen, indem sie sie mit medizinischen Informationen über AHF und geplante Behandlungen versorgen, um ihre Ängste und Unsicherheiten zu verringern (Vella Gera et al., 2021; Gramszlo et al., 2020).

Schlussfolgerungen. Sorgen wie die Angst vor einem Krankenhausaufenthalt, einer Verschlechterung des Gesundheitszustands oder gar dem Tod des Kindes mit AHF sowie Belastungen wie reduzierte Familienaktivitäten, verminderte elterliche Aufmerksamkeit und Unterstützung sowie verlängerte gemeinsame Familienmahlzeiten wurden als negative Erfahrungen von Geschwistern im Zusammenhang mit einer AHF-Diagnose identifiziert. Positive Erfahrungen von Geschwistern im Zusammenhang mit der Erkrankung waren wahrgenommene positive Folgen der AHF – wie ein starker Familienzusammenhalt und Empathie gegenüber dem Geschwisterkind mit der Erkrankung sowie generell gegenüber Menschen mit chronischen Erkrankungen. Zu den positiven Erfahrungen gehörten auch die Bewältigungsmechanismen der Geschwister, wie Gespräche mit Freunden und der Familie über die hohe Prävalenz und erfolgreiche Behandlungen von AHF, sowie Ablenkungen wie Unterhaltung oder Lernen und gemeinsame Familienaktivitäten. Zudem waren die Geschwister sehr an einer zukünftigen Intervention interessiert, die Kommunikation mit und die Empathie und Unterstützung durch gleichaltrige Betroffene sowie medizinische Informationen über AHF beinhaltet. Die in dieser Studie gewonnenen Erkenntnisse sollten für die Beratung und Entwicklung einer krankheitsspezifischen Intervention für Geschwister von Kindern mit AHF genutzt werden. Auch sollten die Eltern, die wie in Kapitel 4.7 beschrieben, stark belastet sind, beispielsweise durch Verwandte oder ehrenamtliche Familienhelfer entlastet werden, damit diese wieder mehr Zeit und Energie für die gesunden Geschwister aufbringen können.

### **7.3 BEITRAG III: Online-Querschnittstudie zur gesundheitsbezogenen Lebensqualität und ihren Prädiktoren bei Geschwistern von Kindern mit angeborenem Herzfehler**

In diesem Kapitel wird der dritte Forschungsbeitrag, eine Online-Querschnittstudie zur HRQoL und ihren Prädiktoren bei Geschwistern von Kindern mit angeborenem Herzfehler (Schamong et al., 2023 subm), mit Blick auf die Studienziele, die verwendeten Methoden, einer Diskussion der gewonnenen Erkenntnisse sowie der daraus abgeleiteten Schlussfolgerungen, dargestellt. Das Manuskript des eingereichten Zeitschriftenartikels und das zugehörige supplementary material sind Anhang B in Kapitel 10 zu entnehmen.

#### **7.3.1 Hintergrund und Studienziele**

Obwohl Geschwister von Kindern mit AHF Veränderungen im Leben erfahren, die sich negativ auf ihre schulischen Leistungen, ihr Verhalten, ihre Gesundheit (Parker et al., 2020) und ihre sozialen Aktivitäten (Williams et al., 1993) auswirken können, ist die Forschung auf diesem Gebiet nach wie vor spärlich (Bichard et al., 2022; Parker et al., 2020; Schamong et al., 2021).

Ein systematisches Review von Schamong und Kollegen (2021) ergab, dass bei bis zu einem Drittel der Geschwister von Kindern mit AHF das psychosoziale Wohlbefinden und die LQ beeinträchtigt waren. Eine der inkludierten Originalstudien mit kleinen Stichproben ergab, dass Geschwister von Kindern mit AHF ( $n = 21$ ) ihre LQ niedriger einschätzten als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen wie Mukoviszidose und Typ-1-Diabetes (Havermans et al., 2015). Eine weitere Studie fand, dass Mütter von Kindern mit AHF sich im Vergleich zu Müttern von Kindern mit neurologischen Erkrankungen weniger der Betreuung der gesunden Geschwister widmen, was sich negativ auf deren LQ auswirken könnte (Williams et al., 1993).

Zu den Faktoren, die den Originalstudien des systematischen Reviews von Schamong und Kollegen (2021) zufolge mit der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens von Geschwistern von Kindern mit AHF in Zusammenhang stehen, gehörten unter anderem ein höheres Alter der Geschwister (Caris et al., 2018), eine höhere Position in der Geburtenreihenfolge (Menke, 1987) weibliches Geschlecht (Williams et al., 1993), die Sichtbarkeit der Erkrankung (Lavigne & Ryan, 1979) sowie eine höhere Komplexität der AHF (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997; Wray & Maynard, 2005).

HRQoL bei Jugendlichen (siehe Begriffsdefinition, Kapitel 3), die die Gesamt-HRQoL und die HRQoL-Domänen körperliches Wohlbefinden, psychisches Wohlbefinden, Autonomie und Beziehung zu den Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie schulisches Umfeld umfasst, ist ein Konzept, das alle Bereiche des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ (siehe Begriffsdefinition, Kapitel 3) vereint, die für Jugendliche im Zusammenhang mit chronischen Erkrankungen relevant sind (Ravens-Sieberer et al., 2014). Bislang gab es keine systematische Erhebung der gesamt- und domänenspezifischen HRQoL an einer großen Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit AHF im Vergleich zu Ge-



schwistern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen. Darüber hinaus wurden mögliche Prädiktoren für die Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF noch nicht analysiert. Anhand dieser Daten könnten Risikogruppen von Geschwistern ermittelt werden, die möglicherweise besonders unterstützungsbedürftig sind und im Betreuungsprozess spezieller Aufmerksamkeit bedürfen.

Studienziele. Auf der Grundlage der oben dargelegten Erkenntnisse zielte diese Studie darauf ab, (i) die gesamt- und domänenspezifische HRQoL einer großen Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit AHF im Vergleich zu einer Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes zu untersuchen und (ii) Prädiktoren für die Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF zu bestimmen. Im Rahmen der vorliegenden Studie wurde die Hypothese aufgestellt, dass (1) Geschwister von Kindern mit AHF niedrigere Werte in der Gesamt-HRQoL und in allen der fünf oberhalb genannten HRQoL-Domänen haben als Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes und (2), dass das Alter der Geschwister, ihre Position in der Geburtsreihenfolge, ihr Geschlecht und die Sichtbarkeit sowie Komplexität der Erkrankung ihrer Geschwister als Prädiktoren für eine niedrigere Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF fungieren.

### **7.3.2 Methodik**

Das Studienprotokoll wurde im Deutschen Register für klinische Studien registriert (ID: DRKS00028874; <https://drks.de/search/de/trial/DRKS00028874>). Die Studie wurde von der Ethikkommission der Medizinischen Fakultät der Universität zu Köln (Nr. 22-1281\_1) am 20. Oktober genehmigt und die Berichterstattung folgte den Richtlinien für die Berichterstattung von Beobachtungsstudien (aus dem Englischen; strengthening the reporting of observational studies in epidemiology; STROBE; Von Elm et al., 2007). Die STROBE-Richtlinien sind in Kapitel 10, im Anhang C in der Supplementary Table C1, enthalten.

Einschluss- und Ausschlusskriterien. Die Zielpopulation waren deutsche Jugendliche im Alter von 14 bis 18 Jahren, die ein Geschwisterkind mit AHF (Zielgruppe) oder Typ-1-Diabetes (Kontrollgruppe) hatten, wobei die Kontrollgruppe aus methodischen Gründen gewählt wurde, da Typ-1-Diabetes, wie AHF (Warnes, 2005), eine chronische Erkrankung mit hoher Prävalenzrate ist, lebenslange medizinische Betreuung erfordert, das Risiko lebensbedrohlicher Komplikationen birgt und mit einer erheblichen psychischen Belastung der ganzen Familie einhergeht (DiMeglio et al., 2018). Um den Inhalt der Fragen zu verstehen, sollten die Teilnehmenden zudem über gute Deutschkenntnisse verfügen. Da jüngere Geschwister im Alter von 10 bis 13 Jahren, in der vorherigen Interviewstudie (Schamong et al., 2022), die auch die Grundlage für einige der in dieser Studie gestellten Fragen bildete, mit dem Inhalt einiger Fragen überfordert schienen, wurde entschieden, nur Teilnehmende ab 14 Jahren einzubeziehen. Die obere Altersgrenze für Teilnehmende war auf 18 Jahre festgelegt, da dies die Altersgrenze des Fragebogens zur Bewertung der HRQoL, des KIDSCREEN-10 und -27 (Ravens-Sieberer et al., 2014)

war. Detailliertere Informationen zu den Fragebögen KIDSCREEN-10 und -27 werden im Abschnitt „Erhebung der HRQoL“ unterhalb gegeben.

Rekrutierung von Teilnehmenden. Ein Informationstext, der die Ziele der Studie und die Einschlusskriterien beschrieb und einen Link zum Online-Fragebogen enthielt, wurde über die Social-Media-Seiten von gemeinnützigen Vereinen, wie dem „Bundesverband Herzkranker Kinder e.V.“, „Herzkind e.V.“ und Online-Foren wie „Diabetes-kids.de“ sowie über interne und externe Krankenhaus-Mailverteiler verbreitet. Aufgrund der sehr spezifischen Stichprobe wurde eine ‚Convenience Sampling-Strategie‘ angewendet. Der Informationstext ist in Kapitel 10, im Anhang C, in Supplementary Document C1 aufgeführt.

Studienablauf und Online-Fragebogen. Der Online-Fragebogen wurde mithilfe des kostenlosen, datenschutzkonformen und barrierefreien Umfragetools SoSci Survey (SoSci Survey GmbH; 2022) erstellt und war unter dem Link [https://www.sosicurvey.de/LQ\\_Geschwister\\_HF\\_Diabetes/](https://www.sosicurvey.de/LQ_Geschwister_HF_Diabetes/) vom 7.11.2022 bis zum 27.05.2023 abrufbar. Zu Beginn der Studie erhielten die Teilnehmenden eine ausführliche Beschreibung der Studienziele und Informationen über den Datenschutz. Dann wurden sie um ihre schriftliche Einwilligung gebeten. Alle Teilnehmenden erhielt die Möglichkeit, einen persönlichen Code zu generieren, um die Rücknahme der Daten zu ermöglichen. Anschließend füllten die Teilnehmenden den Fragebogen selbstständig aus, was etwa 20 Minuten in Anspruch nahm. Erst wurde die HRQoL anhand etablierter Skalen bewertet. Danach wurden soziodemografische und krankheitsbezogene Daten erhoben. Am Ende des Fragebogens hatten die Teilnehmenden die Möglichkeit, Anregungen und Feedback zu geben. Die Beschreibung der Studienziele und Informationen über den Datenschutz sowie der Online-Fragebogen sind in Kapitel 10, im Anhang C in Supplementary Document C2, enthalten.

Erhebung soziodemografischer und krankheitsbezogener Daten. Es wurden soziodemografische und krankheitsbezogene Daten erhoben, um eine umfassende Beschreibung der Stichprobe zu erhalten und Hypothese 2 hinsichtlich möglicher Prädiktoren der Gesamt-HRQoL zu testen. Abgefragt wurden das Alter, das Geschlecht und die Position der Geschwister in der Geburtenreihenfolge, definiert als das jüngere oder das ältere Geschwisterkind. Auch wurden das Alter des Kindes mit der Erkrankung sowie seine Diagnose, entweder AHF oder Typ-1-Diabetes und bei Geschwistern von Kindern mit AHF die exakte Bezeichnung der Diagnose abgefragt. Anschließend wurden die genannten AHF-Diagnosen den Komplexitätsstufen simpel, moderat oder komplex zugeordnet (siehe Tabelle 3 in Kapitel 4.3, eigene Darstellung, modifiziert nach Warnes et al., 2001, Tabelle 4-6). Zuletzt wurden die Geschwister nach ihrer Einschätzung bezüglich der Sichtbarkeit der Erkrankung gefragt, unterteilt in sichtbar und nicht-sichtbar.

Erhebung der HRQoL. Die Gesamt-HRQoL wurde mit dem KIDSCREEN-10-Fragebogen anhand von 10 Items gemessen, die von der KIDSCREEN-27-Item-Version abgeleitet wurden. Die domänenspezifi-

sche HRQoL wurde mit dem KIDSCREEN-27 (Ravens-Sieberer et al., 2014) gemessen, der 27 Items enthält, die die folgenden fünf Dimensionen der HRQoL von Kindern und Jugendlichen im Alter von 8 bis 18 Jahren erfassen: körperliches Wohlbefinden, psychisches Wohlbefinden, Autonomie und Beziehung zu den Eltern, Beziehung zu Gleichaltrigen und soziale Unterstützung sowie schulisches Umfeld. Alle Items wurden auf 5-Punkte-Rasch-Skalen bewertet, wobei die Antwortmöglichkeiten vom Inhalt der Fragen abhingen.

Die resultierenden T-Werte haben Skalenmittelwerte von 50 und eine Standardabweichung von 10, wobei höhere Werte eine höhere HRQoL für beide Fragebögen anzeigen. Für die vorliegende Studie wurden die Daten von Jugendlichen im Alter von 12 bis 18 Jahren aus 12 europäischen Ländern als Referenz herangezogen. Die Spanne der durchschnittlichen HRQoL-Werte dieser Gruppe in T-Einheiten beträgt 42.72 bis 51.41 für die Gesamt-HRQoL, 42.26 bis 51.41 für die Domäne körperliches Wohlbefinden, 42.51 bis 52.09 für die Domäne psychologisches Wohlbefinden, 43.66 bis 53.41 für die Domäne Autonomie und Eltern, 45.18 bis 54.97 für die Domäne soziale Unterstützung und Gleichaltrige und 43.97 bis 53.12 für die Domäne schulisches Umfeld. Werte von mehr als einer Standardabweichung unter bzw. über dem Mittelwert der Referenzpopulation werden als unter- bzw. überdurchschnittlich betrachtet (siehe Tabelle 5 in Kapitel 7.3.3, Spalte „Europäische Normdaten“ des KIDSCREEN 10 & 27, adaptiert von Ravens-Sieberer und Kollegen (2014), modifiziert nach Schamong und Kollegen (2023 subm).

Berechnung des Stichprobenumfangs. Die erforderlichen Stichprobengrößen zum Testen von Hypothese 1 und Hypothese 2 wurden auf Basis der Ergebnisse bisheriger Studien mit G\*Power, Version 3.1.9.7 (Faul et al., 2007) berechnet. Diese Studien berichteten von mittleren Effektstärken beim Vergleich der Gesamt-HRQoL gesunder und chronisch erkrankter Kinder (Ravens-Sieberer et al., 2014), während die negativen Auswirkungen von AHF auf die Geschwister ähnlich hoch sind wie auf die Betroffenen selbst (Azhar et al., 2016). Auch ergaben sich für negative Auswirkungen von AHF auf Aspekte der LQ bei zunehmendem Alter der Geschwister (Caris et al., 2018), einer höheren Position in der Geburtenreihenfolge (Menke, 1987), komplexeren AHF (Varni et al., 2007) sowie einer signifikant niedrigerer Gesamt-HRQoL von weiblichen Teilnehmenden mit Mukoviszidose (Arrington-Sanders et al., 2006) und domänenspezifischer HRQoL (psychosoziale, emotionale und soziale Funktionsfähigkeit) von Teilnehmenden mit sichtbarer Hauterkrankung (Masnari et al., 2019) jeweils mittlere Effektstärken. Es wurde daher von einer mittleren Effektstärke als Mindestanforderung für die Stichprobenberechnung für das Testen von Hypothese 1 und Hypothese 2 ausgegangen.

Statistische Analysen. Die Ergebnisse galten als statistisch signifikant, wenn  $p \leq 0.05$ . Tests auf Normalverteilung der Daten wurden außer Acht gelassen, da der t-Test als robust gegenüber Verletzungen der Normalverteilungsannahme bei Stichproben  $n > 30$  gilt und eine höhere statistische Aussagekraft hat als non-parametrische Verfahren (Stone, 2010).

Es wurden Mittelwerte, Standardabweichungen und Prozentsätze der demografischen und krankheitsbezogenen Merkmale der Stichprobe berechnet. T-Tests wurden angewandt, um Gruppenunterschiede im Alter der Geschwister und im Alter des Kindes mit AHF und Typ-1-Diabetes zu prüfen. Chi-Quadrat-Tests wurden angewandt, um Gruppenunterschiede in Bezug auf die Position der Geschwister in der Geburtenreihenfolge, das Geschlecht der Geschwister und die Sichtbarkeit der Erkrankung zu ermitteln.

T-Tests ( $p < .05$ ) wurden durchgeführt, um Hypothese 1 zu testen, indem die (1) Gesamt-HRQoL und jede der fünf HRQoL-Domänen, (2) körperliches Wohlbefinden, (3) psychisches Wohlbefinden, (4) Autonomie und Eltern, (5) soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie (6) schulisches Umfeld der Geschwister von Kindern mit AHF und Typ-1-Diabetes auf Gruppenebene verglichen wurden. Es wurden einzelne t-Tests durchgeführt, da die Gesamt-HRQoL (gemessen mit dem KIDSCREEN-10) und die HRQoL-Domänen (gemessen mit dem KIDSCREEN-27) konzeptionell unabhängige Skalen darstellen (Ravens-Sieberer et al., 2014). Um die Anzahl der falsch-positiven Ergebnisse bei multiplen Hypothesentests zu kontrollieren, wurde für die fünf HRQoL-Domänen eine Bonferroni-Korrektur ( $= \alpha/5$ ) angewendet, indem das Signifikanzniveau von  $p = .05$  auf  $p = .01$  angepasst wurde. Effekte von 0.2 bis  $< 0.5$  wurden als klein, Effekte von 0.5 bis  $< 0.8$  als mittel und Effekte  $\geq 0.8$  als groß eingestuft (Cohen, 1988).

Eine konfirmatorische, multiple lineare Regressionsanalyse mit Bootstrapping wurde durchgeführt, um Hypothese 2 zu testen. Das Alter der Geschwister, die Position der Geschwister in der Geburtenreihenfolge, das Geschlecht der Geschwister sowie die Sichtbarkeit und die Komplexität der AHF wurden im Block in eine Regression als potenzielle Prädiktoren für die Gesamt-HRQoL (Ravens-Sieberer et al., 2014) eingegeben. Die Variable Geschlecht der Geschwister wurde aufgrund ihrer drei kategorialen Dimensionen weiblich, männlich und divers einer Dummy-Kodierung unterzogen. Es wurde ein Bootstrapping-Ansatz gewählt, da kein linearer Zusammenhang zwischen dem Alter als unabhängiger Variable und der Gesamt-HRQoL als abhängiger Variable bestand (Davison & Hinkley, 2013).

### **7.3.3 Ergebnisse**

Das folgende Kapitel bietet einen Überblick über die gewonnenen Ergebnisse hinsichtlich des benötigten Stichprobenumfangs zum Testen beider Hypothesen, die Datenerhebung, die Ergebnisse bezüglich soziodemografischer und krankheitsbezogener Merkmale sowie der Prüfung von Hypothese 1 und 2.

Benötigter Stichprobenumfang zum Testen von Hypothese 1 und Hypothese 2. Um eine Power von 80% für die Entdeckung eines mittleren Effekts mit einem Signifikanzkriterium von  $\alpha = .05$  zu erreichen, betrug die erforderliche Stichprobengröße  $n = 51$  pro Gruppe, d. h. insgesamt  $N = 102$ , um im Rahmen von Hypothese 1 t-Tests zur Prüfung von Gruppenunterschieden in der gesamt- und domänenspezifischen HRQoL zwischen den Geschwistern von Kindern mit AHF und Typ-1- durchführen zu können.

Um zum Testen von Hypothese 2 in einem multiplen Regressionsmodell mit fünf potenziellen Prädiktoren bei einer Power von 80% und einem Signifikanzkriterium von  $\alpha = .05$  einen mittleren Effekt abzudecken, betrug die erforderliche Stichprobengröße zur Prüfung von Hypothese 2 insgesamt  $N = 92$ .

Datenerhebung. Die Daten wurden von November 2022 bis Mai 2023 erhoben. Insgesamt nahmen 170 Geschwister teil, von denen 86 Teilnehmende Geschwister mit AHF und 84 Teilnehmende Geschwister mit Typ-1-Diabetes hatten. Aufgrund extremer Werte wurden zwei Teilnehmende aus der AHF-Geschwistergruppe und drei Teilnehmende aus der Typ-1-Diabetes-Geschwistergruppe von der weiteren Analyse ausgeschlossen (André, 2022; Jones, 2019). Die endgültige Stichprobe bestand aus 165 Teilnehmenden, von denen 84 Geschwister mit AHF und 81 Geschwister mit Typ-1-Diabetes hatten.

Soziodemografische und krankheitsbezogene Merkmale. T-Tests ergaben, dass die Geschwister beider Gruppen sich nicht signifikant im Alter unterschieden (AHF-Geschwistergruppe:  $M = 15.70$ ,  $SD = 1.35$ ; Typ-1-Diabetes Geschwistergruppe:  $M = 15.79$ ,  $SD = 1.36$ ,  $p > .05$ ), die Kinder mit AHF und Typ-1-Diabetes selbst jedoch einen signifikanten Altersunterschied aufwiesen (Kinder mit AHF:  $M = 11.52$ ,  $SD = 4.83$ ; Kinder mit Typ-1-Diabetes:  $M = 14.16$ ,  $SD = 3.27$ ,  $t(146,62) = -4.12$ ,  $p < .001$ ) mit 2.64 Jahren weniger für die Gruppe der Kinder mit AHF.

Mithilfe von Chi-Quadrat-Tests wurden das Geschlecht der Geschwister (AHF-Geschwistergruppe: weiblich  $n = 59$ , 70.2%; männlich  $n = 24$ , 28.6%; divers  $n = 1$ ; 1.2%. Typ-1-Diabetes Geschwistergruppe: weiblich  $n = 50$ , 61.07%; männlich  $n = 29$ , 35.8%; divers  $n = 2$ ; 2.5%), die Position in der Geburtenreihenfolge (AHF-Geschwistergruppe: jünger  $n = 21$ , 25%; älter  $n = 63$ , 75%. Typ-1-Diabetes Geschwistergruppe: jünger,  $n = 29$ , 35.8%; älter,  $n = 52$ ; 64.2%) und die Sichtbarkeit der Erkrankung (AHF-Geschwistergruppe: sichtbar,  $n = 43$ , 51.2%; nicht sichtbar,  $n = 41$ , 48.8%. Typ-1-Diabetes Geschwistergruppe: sichtbar  $n = 23$ ; 28.4%; nicht sichtbar  $n = 58$ ; 71.6%) zwischen den Gruppen der Geschwister von Kindern mit AHF und Typ-1-Diabetes verglichen. Es gab keinen signifikanten Unterschied in der Geschlechterverteilung und der Position in der Geburtenreihenfolge zwischen beiden Gruppen, aber signifikante Unterschiede in Bezug auf die Sichtbarkeit der Erkrankung ( $\chi^2(1) = 8.93$ ,  $p < .01$ ,  $\phi = .23$ ), mit mehr Geschwistern mit als sichtbar wahrgenommener Erkrankung in der AHF-Geschwistergruppe, bei kleiner Effektgröße.

Die Komplexität der Erkrankung konnte nur für die Gruppe der Kinder mit AHF bestimmt werden, weswegen ein Gruppenvergleich nicht möglich war. Der Großteil der teilnehmenden Geschwister der Kinder mit AHF hatte Geschwister mit moderaten AHF ( $n = 22$ ; 26.2%) oder komplexen AHF ( $n = 61$ ; 72.6%). Nur einer der Teilnehmenden hatte ein Geschwisterkind mit einem simplen AHF ( $n = 1$ ; 1.2%).

Prüfung von Hypothese 1: Vergleiche der Gesamt- und domänenspezifischen HRQoL. Geschwister von Kindern mit AHF wiesen im Vergleich zur Referenzgruppe der europäischen Jugendlichen von 12 bis 18 Jahren unterdurchschnittliche gesamt- und domänenspezifische HRQoL-Werte auf (eine halbe Standardabweichung unter dem Mittelwert der Referenzgruppe).

Ein t-Test ergab, dass die Gesamt-HRQoL der Geschwister in der AHF-Geschwistergruppe mit -3.89 T-Einheiten signifikant niedriger war als die der Typ-1-Diabetes-Gruppe ( $t(163) = -6,06, p < .001$ ), mit einer großen Effektstärke (Cohen's  $d = .85$ ). In allen t-Tests zum Vergleich der HRQoL-Domänen zeigten die Geschwister von Kindern mit AHF signifikant niedrigere HRQoL-Werte als die Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes. In der Domäne körperliches Wohlbefinden waren die Werte 3.02 T-Einheiten niedriger ( $t(163) = -3,60, p < .001$ ), mit einer mittleren Effektstärke (Cohen's  $d = .54$ ); in der Domäne psychologisches Wohlbefinden waren sie 4.67 T-Einheiten niedriger ( $t(163) = -5.60, p < .001$ ), mit einer großen Effektstärke (Cohen's  $d = .84$ ); in der Domäne Autonomie und Eltern waren sie 2.37 T-Einheiten niedriger ( $t(163) = -3.52; p < .001$ ) mit einer mittleren Effektstärke (Cohen's  $d = .50$ ); in der Domäne soziale Unterstützung und Gleichaltrige waren sie 3.89 T-Einheiten niedriger ( $t(163) = -2.85, p < .001$ ), mit einer mittleren Effektstärke (Cohen's  $d = .62$ ) und in der Domäne schulisches Umfeld waren sie 4.08 T-Einheiten niedriger ( $t(163) = -5.00, p < .001$ ), mit einer mittleren Effektstärke (Cohen's  $d = .75$ ).

Die mittleren HRQoL-Werte für die AHF- und Typ-1-Diabetes-Geschwistergruppen und die europäischen Normdaten für Jugendliche im Alter von 12 bis 18 Jahren sind in Tabelle 5 dargestellt.

**Tabelle 5**

*Mittlere HRQoL-Werte der Gruppe der Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehler- und Typ-1-Diabetes sowie europäische Normdaten von Jugendlichen im Alter von 12 bis 18 Jahren – Beitrag III*

HRQoL-Domänen	AHF-Geschwistergruppe Jugendliche 14 - 18 Jahre (M/SD)	Typ-1-Diabetes Geschwistergruppe Jugendliche 14 - 18 Jahre (M/SD)	Europäische Normdaten Jugendliche 12-18 Jahre (M/SD)
1. Gesamt-HRQoL, KIDSCREEN-10	38.33/4.33	42.22/3.91	47.21/8.98
2. Körperliches Wohlbefinden, KIDSCREEN-27	39.81/6.14	42.84/4.51	46.83/9.15
3. Psychologisches Wohlbefinden, KIDSCREEN-27	37.74/5.65	42.41/4.29	47.30/9.58
4. Autonomie und Eltern, KIDSCREEN-27	41.88/4.40	44.24/4.26	48.53/9.75
5. Soziale Unterstützung und Gleichaltrige, KIDSCREEN-27	39.61/4.62	42.45/4.08	50.07/9.97
6. Schulisches Umfeld, KIDSCREEN-27	39.92/5.01	44.00/5.08	48.54/9.15

*Abkürzung.* AHF = angeborene Herzfehler. *Quelle.* KIDSCREEN 10 & 27 adaptiert von Ravens-Sieberer und Kollegen (2014), modifiziert nach Schamong und Kollegen (2023 subm).

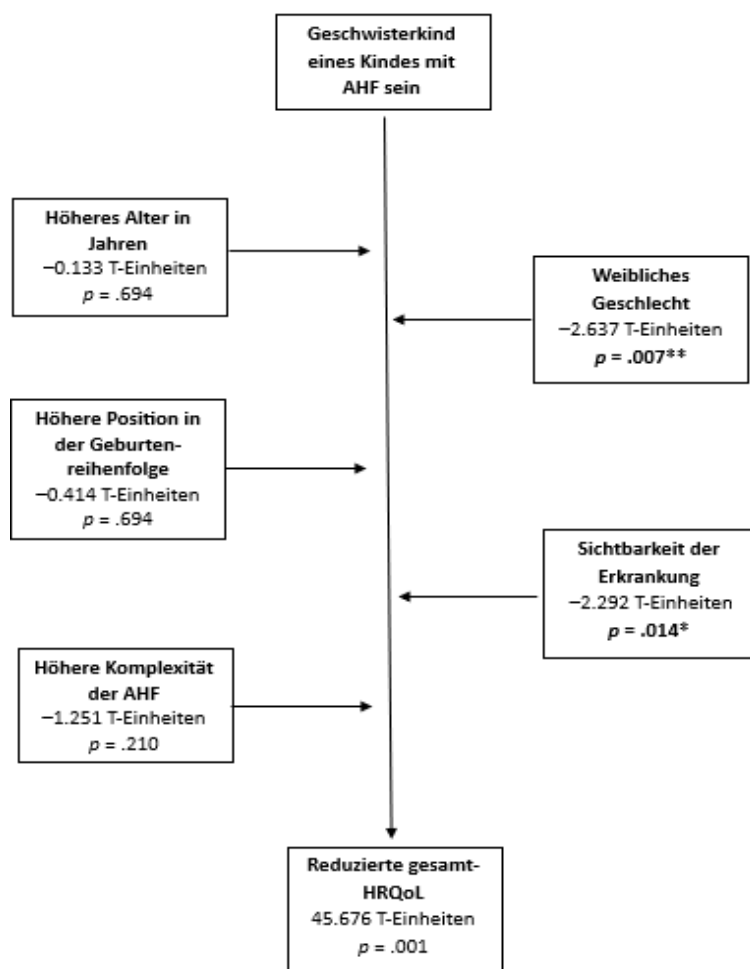
Prüfung von Hypothese 2: Prädiktoren der gesamt-HRQoL. Das angepasste multiple lineare Regressionsmodell ergab sich wie folgt: Gesamt-HRQoL = 45.676 - 0.133 \* (Alter) - 0.414 \* (Geburtsreihenfolge) - 2.637 \* (Geschlecht) - 2.292 \* (Sichtbarkeit des AHF) - 1.251 \* (Komplexität des AHF). Die Gesamtregression war statistisch signifikant ( $R^2 = .22$ , bereinigtes  $R^2 = .17$ ;  $F(5,78) = 4.47, p = .001$ ), was

auf eine moderate Anpassungsgüte hinweist (Cohen, 2016). Das Modell erklärt 17.3% der Varianz der Gesamt-HRQoL.

Es wurde festgestellt, dass weibliches Geschlecht ( $\beta = -.289, p = .007$ ) und die Sichtbarkeit der Erkrankung ( $\beta = .266, p = .014$ ) die Gesamt-HRQoL der Geschwister signifikant vorhersagte. Ein höheres Alter der Geschwister, eine höhere Position in der Geburtenreihenfolge und eine höhere Komplexität des AHF sagten die Gesamt-HRQoL der Geschwister hingegen nicht signifikant voraus. Die Konfidenzintervalle enthielten für keinen signifikanten Prädiktor null, sodass dieses Ergebnis robust war. Die Rolle, die jede der Variablen im Regressionsmodell spielt, ist in Abbildung 5 dargestellt.

**Abbildung 5**

*Direkter azyklischer Graph der Beziehung zwischen den Variablen des Regressionsmodells – Beitrag III*



*Abkürzungen.* AHF = angeborene Herzfehler, HRQoL = gesundheitsbezogene Lebensqualität, aus dem Englischen health-related quality of life. *Anmerkungen.* Sichtbarkeit der Erkrankung nach Selbsteinschätzung der Geschwister unterteilt in „sichtbar“ und „nicht sichtbar“, Komplexität der AHF in unterteilt in "simpl", "moderat" und "komplex", nach der Klassifizierung von Warnes und Kollegen (2001; Tabellen 4-6), modifiziert nach Schamong und Kollegen (2023 subm) siehe Tabelle 3 in Kapitel 4.3. *Quelle.* Eigene Darstellung.

### 7.3.4 Diskussion

Die wichtigsten Ergebnisse waren, dass (1) Geschwister von Kindern mit AHF sowohl eine signifikant niedrigere Gesamt-HRQoL als auch signifikant niedrigere Werte in allen fünf getesteten HRQoL-Domänen haben als Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes, was Hypothese 1 bestätigt, und dass (2) weibliches Geschlecht und die Sichtbarkeit der Erkrankung als Prädiktoren für eine niedrigere Gesamt-HRQoL bei Geschwistern von Kindern mit AHF wirken, was Hypothese 2 teilweise bestätigt.

Die Gesamt-HRQoL der Geschwister. Die Daten zeigen, dass Geschwister von Kindern mit AHF eine signifikant niedrigere Gesamt-HRQoL haben als Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes. Dies könnte auf die spezifischen Sorgen und Belastungen zurückzuführen sein, die durch AHF verursacht werden (Schamong et al., 2022). Kinder mit AHF müssen in der Regel gleich nach der Geburt stationär behandelt werden (Sun et al., 2015) und Entwicklungsstörungen können daraus resultieren (Hövels-Gürich, 2016). Auch bestehen bei einem AHF lebenslang unkontrollierbare Risiken einer akuten Exazerbation wie Lungenhochdruck oder Herzrhythmusstörungen (Marelli et al., 2014). Bei moderaten und komplexen AHF sind zudem mehrere Eingriffe und eine lebenslange medizinische Behandlung erforderlich (Ionescu-Iltu et al., 2010), beispielsweise, wenn künstliche Herzklappen aufgrund ihres mangelnden Wachstumspotenzials, Immunabstoßung, Infektionen oder Verkalkung ersetzt werden müssen (Limongi et al., 2021; Matsuzaki et al., 2021; Shinoka et al., 1998). Weitere mögliche, wenn auch seltene Folge von AHF-Behandlungen sind irreversible Hirnschäden und daraus resultierende Schwerbehinderungen, oder sogar der Tod aufgrund von Sauerstoffmangel während einer Operation (McQuillen et al., 2007). Das Antizipieren oder Erleben solcher Ereignisse kann Geschwister emotional überwältigen und ihr grundlegendes psychologisches Bedürfnis nach Sicherheit und Kontrolle bedrohen (Holderman, 2017; Long et al., 2015; Weems & Overstreet, 2008). Dies ist wahrscheinlich auch der Grund, warum Geschwister, die im Rahmen einer qualitativen Studie befragt wurden, angaben, dass sie Krankenhausaufenthalte, eine Verschlechterung des Gesundheitszustands bis hin zum Tode, oder auch eine Ausgrenzung des Kindes mit AHF fürchten (Schamong et al., 2022). Geringere elterliche Aufmerksamkeit sowie eine hohe psychische Belastung der Eltern (Biber et al., 2019; Lawoko & Soares, 2002, 2006; Sood et al., 2018), eingeschränkte Familienaktivitäten und ein Verlust an Routine durch Krankenhausaufenthalte und die vorübergehende Übernahme elterlicher Pflichten belasten die Geschwister von Kindern mit AHF zusätzlich (Schamong et al., 2022; Williams et al., 1993), nicht aber die Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes. Typ-1-Diabetes tritt außerdem selten vor dem Alter von sieben Jahren auf, ist nicht mit langen oder wiederholten Krankenhausaufenthalten verbunden und kann außerhalb des Krankenhauses behandelt werden (DiMeglio et al., 2018). Im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes ist es für Geschwister von Kindern mit AHF daher weniger wahrscheinlich, dass sie von ihren Eltern ausreichend Aufmerksamkeit und Unterstützung erhalten, insbesondere wenn sie diese am meisten benötigen.



Die domänenspezifische HRQoL der Geschwister. Die Geschwister von Kindern mit AHF schnitten in allen fünf HRQoL-Domänen signifikant schlechter ab als die Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes. Wie oben beschrieben, ist dies höchstwahrscheinlich auf die tiefgreifenden und anhaltenden Sorgen und Belastungen im Zusammenhang mit AHF zurückzuführen (Biber et al., 2019; Lawoko & Soares, 2002, 2006; Schamong et al., 2022; Sood et al., 2018; Williams et al., 1993), die Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes nicht erleben (DiMeglio et al., 2018). Dieses spezifische Profil an Sorgen und Belastungen scheint sich offenbar besonders negativ auf das psychologische Wohlbefinden der Geschwister auszuwirken, was sich in der Tatsache widerspiegelt, dass diese HRQoL-Domäne den niedrigsten Mittelwert aller fünf getesteten Domänen aufweist. Dieses Ergebnis deckt sich mit einer Studie, die ergab, dass Eltern die negativen psychologischen Auswirkungen von AHF auf die LQ von Geschwistern fast genauso hoch bewerteten wie die Auswirkungen auf das Kind mit dem AHF selbst (Azhar et al., 2016), sowie den Ergebnissen eines systematischen Reviews (Schamong et al., 2021), in dem festgestellt wurde, dass die Geschwister vielfältige Einschränkungen des psychologischen Wohlbefindens in Form von Angst, Traurigkeit, Depression, Sorgen, Eifersucht und Gefühle der Ablehnung empfinden. Laut des systematischen Reviews von Schamong und Kollegen (2021) hatten die Geschwister auch gesundheitliche, schulische und verhaltensbezogene Probleme, was sich in den ebenfalls niedrigen Durchschnittswerten in den HRQoL-Domänen körperliches Wohlbefinden, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie schulisches Umfeld widerspiegelt. Geringere elterliche Aufmerksamkeit und Unterstützung sowie eingeschränkte familiäre und soziale Aktivitäten aufgrund von elterlichem Eingebundensein in die AHF-Behandlung könnten diese unterdurchschnittlichen Werte erklären, da eine geringere Aufmerksamkeit für die Gesundheitsprobleme der Geschwister, eine geringere Förderung ihrer sozialen Aktivitäten und ihrer Freizeitgestaltung sowie eine geringere Unterstützung bei den Schulaufgaben mutmaßliche Konsequenzen sind und ebenfalls in einer Interviewstudie als Belastungen der Geschwister genannt wurden (Schamong et al., 2022). Von allen fünf HRQoL-Domänen erzielten die Geschwister den höchsten Durchschnittswert in der Subdomäne Autonomie und Eltern, was darauf hindeutet, dass sie in diesem Aspekt am wenigsten belastet sind. Dies könnte darauf zurückzuführen sein, dass die Geschwister durch ihre Erfahrungen mit emotional oder physisch abwesenden Eltern bereits ein höheres Maß an Autonomie erlangt haben als ihre Altersgenossen (McBride-Chang & Chang, 1998). Außerdem könnten die Geschwister die Bemühungen ihrer Eltern, sie trotz der schwierigen Situation so gut wie möglich zu unterstützen, wohlwollend wahrgenommen haben, was sich positiv auf die Eltern-Kind-Beziehung ausgewirkt haben könnte (Nabors et al., 2019).

Prädiktoren der Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF. Weibliches Geschlecht wurde als Prädiktor für eine niedrigere Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF identifiziert. Dies könnte darauf zurückzuführen sein, dass Mädchen dazu neigen, den sozialen Druck zu verinnerlichen, der von Geschlechterstereotypen ausgeht, indem sie ,automatisch' mehr der zu Hause anfallenden Arbeit wie Hausarbeit oder Geschwisterbetreuung übernehmen (Perry & Pauletti, 2011),

die unerledigt bleiben, wenn mindestens ein Elternteil mit der Pflege des Kindes mit AHF beschäftigt ist (Williams et al., 1993).

Bestimmte, komplexe Formen von AHF können nicht kurativ behandelt werden und führen zu sichtbaren Symptomen wie Trommelschlägerfingern, Blaufärbung der Haut, Knochendeformationen und vermindertem Wachstum (Kyavar & Sadeghpour, 2014). Diese optischen Anzeichen des Fortschreitens (Progredienz) der Erkrankung können bei den Geschwistern dieser Kinder erhebliche Ängste hervorrufen (Tutus et al., 2023) und die Befürchtung wecken, dass die Kinder mit AHF von Gleichaltrigen ausgeschlossen oder beschämt werden könnten (Bagai & Erratt, 2019). Dies könnte wiederum erklären, warum die Sichtbarkeit des AHF ein Prädiktor für eine geringere Gesamt-HRQoL der Geschwister ist.

Stärken. Nach vorliegendem Kenntnisstand ist dies die erste Studie, (i) die die gesamt- und domänenspezifische HRQoL einer großen Gruppe von Geschwistern von Kindern mit AHF erhoben und mit der von Geschwistern von Kindern mit einer anderen chronischen Erkrankung verglichen hat sowie (ii) Prädiktoren für die Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF identifiziert hat. Eine weitere Stärke ist der hohe Qualitätsstandard der Studie, die die höchsten methodischen Anforderungen in den Bereichen Studienprotokoll, Datenerhebung und Manuskripterstellung auf der Grundlage der STROBE-Richtlinien (Von Elm et al., 2007) erfüllt.

Limitationen. Bei der Interpretation der Ergebnisse müssen einige Limitationen berücksichtigt werden. So waren die Kinder mit dem AHF im Schnitt 2.6 Jahre jünger und die Sichtbarkeit der Erkrankung war bei ihnen doppelt so häufig wie bei Kindern mit Typ-1-Diabetes. Da Typ-1-Diabetes jedoch selten vor dem Alter von sieben Jahren auftritt (DiMeglio et al., 2018) und AHF von Geburt an bestehen (Sun et al., 2015), können Auswirkungen einer längeren Exposition der Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes gegenüber der Erkrankung nicht angenommen werden. Die Tatsache, dass es in der AHF-Geschwistergruppe fast doppelt so viele Teilnehmende mit Geschwistern mit sichtbarer Erkrankung gab, könnte die Ergebnisse jedoch in Richtung einer niedrigeren HRQoL verzerrt haben, insbesondere, da eine sichtbare Erkrankung als Prädiktor einer niedrigeren Gesamt-HRQoL in dieser Gruppe identifiziert wurde. Das unausgewogene Verhältnis von Alter, Geschlecht und Position in der Reihenfolge unter den Teilnehmenden beider Gruppen sowie das unausgewogene Verhältnis hinsichtlich der Komplexität der Erkrankung unter den Kindern mit AHF schränken die Repräsentativität und Generalisierbarkeit der Ergebnisse weiter ein und sind vermutlich eine Folge der ,Convenience Sampling-Strategie', die aufgrund der hochspezifischen Stichprobe angewendet wurde. So machten die ältesten Geschwister (18 Jahre) nur etwa ein Zehntel der Teilnehmenden in der AHF-Geschwistergruppe aus und waren damit deutlich unterrepräsentiert, während die restlichen Geschwister alle nur einer Stufe der Adoleszenz entstammten (frühe Adoleszenz: 14-17 Jahren; Oerter & Dreher, 2008). Darüber hinaus sind die Geschwister von Kindern mit komplexen AHF, die etwa zwei Drittel der Teilnehmenden ausmachten, naturgemäß stärker durch Eingriffe und damit verbundene

Krankenhausaufenthalte belastet (de Man et al., 2021), als die Geschwister von Kindern mit moderaten AHF (ein Drittel der Teilnehmenden) oder simplen AHF (nur einer der Teilnehmenden), weshalb sie vermutlich eine höhere Motivation hatten, an einer solchen Studie teilzunehmen. Aufgrund dieses ‚Selektions-Bias‘ können zum einen keine Aussagen über die HRQoL von Geschwistern von Kindern mit simplen AHF gemacht werden und zum anderen wurden aufgrund dieser Missverhältnisse vermutlich auch die Prädiktoren Alter, Position in der Geburtenreihenfolge und Komplexität der AHF nicht signifikant. Künftige Untersuchungen sollten ausgewogenere Stichproben in Bezug auf diese Variablen anstreben.

Implikationen für zukünftige Forschung. Trotz der in der vorliegenden Studie festgestellten, erheblich beeinträchtigten gesamt- und domänenspezifischen HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF gibt es nur wenig Forschung über diese Gruppe (Parker et al., 2020; Schamong et al., 2021). Aufgrund der beeinträchtigten HRQoL benötigen die Geschwister jedoch dringend Unterstützung. Um dem Unterstützungsbedarf des größtmöglichen Anteils von Geschwistern von Kindern mit AHF gerecht zu werden, sollte eine größere Gruppe, die auch Geschwister von Kindern mit simplen AHF einschließt, auf Basis der Ergebnisse der Interviewstudie von Schamong und Kollegen (2022) zu ihrem Unterstützungsbedarf und ihren Ressourcen befragt werden. Die Ergebnisse einer solchen Studie könnten dann im Rahmen der Entwicklung von zukünftigen Interventionen und Beratungskonzepten für Familien von Kindern mit AHF genutzt werden. Beratung und künftige Interventionen sollten sich besonders auf das psychologische Wohlbefinden der Geschwister konzentrieren, da diese HRQoL-Domäne am stärksten beeinträchtigt war. Programme wie der deutsche „ModuS-Geschwisterworkshop“ für Geschwister von Kindern mit Behinderungen und chronischen Erkrankungen vermitteln Krankheitswissen und stärken das Selbstwertgefühl, um Stress zu reduzieren und zu vermeiden, und sensibilisieren die Eltern für die Bedürfnisse der Geschwister (Ernst et al., 2020). Solche Programme könnten in der Interventionsentwicklung als Modelle dienen, die mit Einheiten zu AHF-spezifischen Sorgen und Belastungen erweitert werden sollten und bestehende Ressourcen und Bewältigungsmechanismen vermitteln und fördern könnten (Schamong et al., 2022).

Implikationen für die Praxis. Die Ergebnisse der Studie deuten darauf hin, dass die gesamt- und domänenspezifische HRQoL von Geschwistern von Kindern mit moderaten und komplexen AHF stark beeinträchtigt ist und dass sie dringend Unterstützung benötigen, insbesondere hinsichtlich ihres psychologischen Wohlbefindens. Besonderes Augenmerk sollte zudem im Versorgungsprozess auf weibliche Geschwisterkinder gelegt werden. Die Sensibilisierung und Reflexion von gesellschaftlichen Rollenbildern könnte dazu beitragen, die Aktivierung unbewusster Geschlechterstereotypen zu verhindern, die wiederum zu einer unausgewogenen Übernahme von Haus- und Betreuungsarbeit durch weibliche Geschwister führen könnten (Perry & Pauletti, 2011). Die Progredienz Angst bei denjenigen, die ihre Geschwister als sichtbar krank wahrnehmen, könnte durch die Vermittlung von Krank-

heitswissen, Prognosen (Ernst et al., 2020) und zukünftiger, sich in der Erprobung befindlicher Behandlungsmethoden reduziert werden (Mirani et al., 2021). Darüber hinaus könnte der Sorge, dass das kranke Geschwisterkind ausgegrenzt oder beschämt werden könnte, durch Techniken zur Steigerung der Selbstwirksamkeit und des Vorbildcharakters entgegengewirkt werden (Bagai & Erratt, 2019).

Trotz der zahlreichen betroffenen Geschwister wird bisher keine Diagnostik ihrer LQ und ihres Unterstützungsbedarfs durchgeführt. Auch gibt es keine Unterstützung in Form von Beratung oder Interventionen speziell für diese Gruppe (Schamong et al., 2021). Daher sollten Mitarbeitende im Gesundheitswesen sich selbst und die Familien, insbesondere die Eltern, für die besonderen Herausforderungen der Geschwister sensibilisieren. Darüber hinaus sollten die Geschwister in den Aufklärungsprozess und die Behandlungsplanung in altersgerechter Weise miteinbezogen werden (Schamong et al., 2022). Hierzu könnten die Familien bereits von den diagnosestellenden Mitarbeitenden der Pränatalmedizin an psychosoziale Mitarbeitende auf kinder-kardiologischen Stationen vermittelt werden.

Schlussfolgerungen. Die Gesamt- und domänenspezifische HRQoL von Geschwistern von Kindern mit moderaten und komplexen AHF ist signifikant niedriger als die von Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes, was wahrscheinlich auf die spezifischen Sorgen und Belastungen zurückzuführen ist, die Geschwister von Kindern mit AHF betreffen. Künftige Unterstützungsangebote für Geschwister von Kindern mit AHF sollten dringend entwickelt werden und AHF-spezifischen Sorgen und Belastungen sowie deren Auswirkungen auf das besonders beeinträchtigte psychologische Wohlbefinden der Geschwister adressieren, aber auch bereits vorhandene Ressourcen und Bewältigungsmechanismen fördern und stärken. Da weibliches Geschlecht und die Sichtbarkeit der Erkrankung als Prädiktoren einer geringeren Gesamt-HRQoL bei Geschwistern von Kindern mit AHF identifiziert wurden, sollten künftige Interventionen diese Geschwister im Versorgungsprozess besonders berücksichtigen. Darüber hinaus sollten Mitarbeitende im Gesundheitswesen sich selbst und die Familien der Geschwister von Kindern mit AHF für die anhaltenden emotionalen Herausforderungen sensibilisieren, mit denen die Geschwister konfrontiert sind.

## 8 Diskussion und Ausblick

Im Rahmen dieses Kapitels erfolgt zunächst eine Diskussion der übergeordneten Fragestellungen der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen, die eine Diskussion der Anteile der drei Forschungsbeiträge zur Beantwortung der übergeordneten Fragestellung sowie Implikationen für die Interventionsentwicklung, zukünftige Studien und der Praxis enthält, die dann im Rahmen eines Fazits mit Ausblick zusammengefasst werden.

### 8.1 Diskussion der übergeordneten Fragestellungen der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen

Die vorliegende Arbeit zielte erstens darauf ab, im Rahmen eines systematischen Reviews (Beitrag I; Schamong et al., 2021) die Auftretenshäufigkeit und die Art potenzieller Einschränkungen des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF zu untersuchen und festzustellen, ob diese stärker und auf andere Weise betroffen sind als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen, sowie soziodemografische und krankheitsbezogene Faktoren zu erforschen, die mit dem psychosozialen Wohlbefinden und der LQ der Geschwister von Kindern mit AHF assoziiert sind. Auch sollte ermittelt werden, ob es Interventionen gibt, die Geschwister von Kindern miteinbeziehen und falls ja, welche Vorteile diese bieten. Zweitens sollten im Rahmen einer qualitativen Interviewstudie mit Geschwister-Eltern-Paaren (Beitrag II; Schamong et al., 2022 subm) Erfahrungen erforscht werden, die negativ und positiv mit der AHF-Diagnose eines Geschwisterkindes in Zusammenhang stehen, sowie das Unterstützungsinteresse und die Art des Unterstützungsbedarfes von Geschwistern von Kindern mit AHF exploriert werden. Drittens sollten mithilfe einer Online-Querschnittstudie (Beitrag III; Schamong et al., 2023 subm) die Gesamt-HRQoL und die HRQoL-Domänen körperliches Wohlbefinden, psychologisches Wohlbefinden, Autonomie und Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie schulisches Umfeld an einer großen Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit AHF mit Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes verglichen werden sowie in Beitrag I ermittelte potenzielle soziodemografische und krankheitsbezogene Prädiktoren der Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF getestet werden.

Im Folgenden soll nun die Diskussion dieser übergeordneten Fragestellungen erfolgen, indem die Ergebnisse der drei Beiträge verknüpft und ihr Mehrwert vor dem bisherigen Forschungsstand diskutiert wird. Schließlich werden aus den Ergebnissen der Beiträge sowohl Implikationen für zukünftige Forschung als auch Schlussfolgerungen für den klinischen Alltag gezogen. Die Arbeit schließt dann mit einem Fazit und Ausblick.

### **8.1.1 Anteil von Beitrag I und III zur Beantwortung der übergeordneten Fragestellung der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen**

Beitrag I (Schamong et al., 2021) ermittelte Beeinträchtigungen des psychosozialen Wohlbefindens bei bis zu 40% und Einbußen in der LQ bei bis zu einem Drittel der Geschwister von Kindern mit AHF. Zusammengenommen litten die Geschwister unter vielfältigen psychischen Belastungen wie Angst, Depression, Wut und Unsicherheit (Apley et al., 1967; Wray & Maynard, 2005), aber auch sozialen Schwierigkeiten wie Verhaltensproblemen (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997), verminderter elterlicher Aufmerksamkeit (Azahr et al., 2016; Janus & Goldberg, 1997; Wray & Maynard, 2005), verringerten Familienaktivitäten (Wray & Maynard, 2005), Eifersucht (Azahr et al., 2016) sowie unter Einbußen ihrer schulischen Leistungsfähigkeit (Azhar et al., 2016; Mughal et al., 2011) und ihrer Gesundheit (Mughal et al., 2011). Auch waren die psychologischen Auswirkungen der Erkrankung auf die LQ der Geschwister laut ihrer Eltern annähernd so hoch wie die Auswirkungen auf deren Kinder mit dem AHF selbst (Azhar et al., 2016). Eine Studie mit kleinen Fallzahlen ergab, dass Geschwister von Kindern mit AHF ( $n = 21$ ) und Krebs ihre LQ in Bezug auf ihre psychische Gesundheit, ihr Verhalten und ihr Selbstwertgefühl schlechter bewerteten als Geschwister von Kindern mit Mukoviszidose oder Typ-1-Diabetes und die negativen Auswirkungen der Erkrankung im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit Krebs, Typ-1-Diabetes und Mukoviszidose am höchsten bewerten (Havermans et al., 2015).

Zu den Faktoren, die Beitrag I (Schamong et al., 2021) zufolge mit den Beeinträchtigungen des psychosozialen Wohlbefindens der Geschwister von Kindern mit AHF in Zusammenhang standen, gehörte ein höheres Alter der Geschwister (Caris et al., 2018), eine höhere Position in der Geburtenreihenfolge (Menke, 1987), weibliches Geschlecht und ein niedriger sozioökonomischer Status der Familie, (Williams et al., 1993), die Sichtbarkeit der Erkrankung, (Lavigne & Ryan, 1979), vorherige Fehlgeburten oder der Verlust eines Geschwisterkindes in der Familie sowie eine höhere Komplexität der AHF (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997; Wray & Maynard, 2005).

Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) fand, dass Geschwister von Kindern mit AHF sowohl eine signifikant niedrigere Gesamt-HRQoL, als auch signifikant niedrigere Werte in allen fünf getesteten HRQoL-Domänen (körperliches Wohlbefinden, psychologisches Wohlbefinden, Autonomie und Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie schulisches Umfeld) hatten als Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes und unterdurchschnittlich niedrige Werte der Gesamt- und domänenspezifischen HRQoL im Vergleich zur Referenzpopulation europäischer Jugendlicher (12 bis 18 Jahre) aufwiesen. Zudem ergab eine Regressionsanalyse, dass weibliches Geschlecht und die Sichtbarkeit der Erkrankung als Prädiktoren einer niedrigeren Gesamt-HRQoL bei Geschwistern von Kindern mit AHF wirken.

Dass die HRQoL-Domäne psychologisches Wohlbefinden bei Geschwistern von Kindern mit AHF den niedrigsten Mittelwert aller fünf Domänen aufweist, ist an dieser Stelle besonders hervorzuheben, da dies sich mit den Ergebnissen von Beitrag I (Schamong et al., 2021) deckt, dass die Geschwister

unter vielfältigen psychischen Belastungen leiden und zudem den bereits oberhalb genannten Ergebnissen von Azhar und Kollegen (2016) entspricht, dass Eltern die negativen psychologischen Auswirkungen von AHF auf die LQ von Geschwistern fast genauso hoch bewerteten wie die Auswirkungen auf das Kind mit dem AHF selbst. In den ebenfalls unterdurchschnittlich niedrigen Werten in den HRQoL-Domänen soziale Unterstützung und Gleichaltrige, schulisches Umfeld sowie körperliches Wohlbefinden spiegeln sich zudem die in Beitrag I (Schamong et al., 2021) ermittelten verhaltensbezogenen, schulischen und gesundheitlichen Probleme der Geschwister von Kindern mit AHF wider. Geringere elterliche Aufmerksamkeit und Unterstützung sowie eingeschränkte familiäre und soziale Aktivitäten der Geschwister aufgrund elterlichem Eingebundensein in die AHF-Behandlung sowie elterliche Abwesenheit aufgrund wiederholter Krankenhausaufenthalte (Connor et al., 2005; Van Der Bom et al., 2011), könnten diese unterdurchschnittlichen Werte erklären. Da in der Konsequenz eine geringere Aufmerksamkeit für die Gesundheitsprobleme der Geschwister, eine geringere Förderung ihrer sozialen Aktivitäten und ihrer Freizeitgestaltung sowie eine geringere Unterstützung bei den Schulaufgaben zu erwarten sind. Weitere Evidenz für diese Annahme liefern Ergebnisse von Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm), da genau diese Aspekte von den Geschwistern als Belastungen benannt wurden (Schamong et al., 2022 subm) und auch in weiteren Arbeiten über Geschwister und Familien von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen und Behinderungen als solche identifiziert wurden (Barlow & Ellard, 2006; Gan et al., 2017; La Clare, 2013). Nichtsdestotrotz erzielten die Geschwister von Kindern mit AHF den höchsten Durchschnittswert aller getesteten HRQoL-Domänen in dem Bereich Autonomie und Eltern, was darauf hindeutet, dass sie in diesem Aspekt trotz der zuvor genannten Einbußen an elterlicher Aufmerksamkeit, am wenigsten belastet sind. Dies könnte darauf zurückzuführen sein, dass die Geschwister von Kindern mit AHF durch ihre Erfahrungen mit emotional oder physisch zeitweise abwesenden Eltern schon früher ein größeres Maß an Autonomie erlangten als ihre Altersgenossen (McBride-Chang & Chang, 1998). Außerdem könnten die Geschwister, wie weiteren Studien über Geschwister von Kindern mit Krebs (Ballard, 2004) und anderen chronischen Erkrankungen (La Clare, 2013; Nabors et al., 2019) implizieren, die Bemühungen ihrer Eltern, sie trotz der schwierigen Situation so gut wie möglich zu unterstützen, wohlwollend wahrgenommen haben, was sich wiederum positiv auf die Eltern-Kind-Beziehung ausgewirkt haben könnte.

Zur korrekten Einordnung der Ergebnisse von Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) ist es essenziell zu erwähnen, dass an der Online-Querschnittstudie bis auf eine Person nur Geschwister von Kindern mit moderaten oder komplexen AHF teilgenommen haben (siehe Tabelle 3, Klassifikation nach Warnes et al., 2001) und sich die Generalisierbarkeit der Ergebnisse somit lediglich auf Geschwister von Kindern mit moderaten und komplexen AHF beschränkt und keine Aussagen über die HRQoL von Geschwistern von Kindern mit simplen AHF getroffen werden können. Jedoch ist anzunehmen, dass die niedrigere gesamt- und domänenspezifische HRQoL von Geschwistern von Kindern mit moderaten

oder komplexen AHF im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes auf eine krankheitsspezifische Kombination von Sorgen und Belastungen von Geschwistern von Kindern mit moderaten und komplexen AHF zurückzuführen ist, auf die die Ergebnisse von Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) Hinweise liefern. Für ein tieferes Verständnis dieses AHF-spezifischen Profils von Sorgen und Belastungen der Geschwister von Kindern mit moderaten und komplexen AHF werden die Ergebnisse von Beitrag II im nächsten Abschnitt genauer beleuchtet.

Aus den Ergebnissen von Beitrag I und III (Schamong et al., 2021; Schamong et al., 2023 subm) wird deutlich, dass Geschwister von Kindern mit moderaten und komplexen AHF aufgrund ihrer relevanten Beeinträchtigungen in den untersuchten Konstrukten wie dem psychosozialen Wohlbefinden, der LQ und der HRQoL dringend Unterstützung benötigen. Auch die Ergebnisse mehrerer Originalstudien (Apley et al., 1967; Janus & Goldberg, 1997; Wray & Maynard, 2005) aus Beitrag I (Schamong et al., 2021) unterstützen diese Annahme. Die Komplexität der AHF als Prädiktor wurde zudem möglicherweise aufgrund der fehlenden teilnehmenden Geschwister von Kindern mit simplen AHF nicht signifikant. Dennoch hatten aber die Geschwister von Kindern mit moderaten und komplexen AHF, die nahezu 100% der AHF-Geschwistergruppe ausmachten, im Schnitt eine signifikant schlechtere gesamt- und domänenspezifische HRQoL als Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes (Schamong et al., 2023 subm). Zusätzliche Evidenz für die Annahme, dass Geschwister von Kindern mit komplexeren AHF besonders von einer supportiven Intervention profitieren würden, liefern Vermaes et al. (2012), die ermittelten, dass Erkrankungen mit höherer Morbidität und Mortalität und somit auch generell stärkeren Auswirkungen, den stärksten moderierenden Faktor bezüglich der Wirksamkeit von Maßnahmen zur Steigerung des Wohlbefindens von Geschwistern von Kindern mit chronischen Erkrankungen darstellen. Zusätzlich ist hier besonders auf weibliche Geschwister und Geschwister von Kindern mit sichtbaren AHF zu achten, da es sich bei diesen Merkmalen laut Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) um Prädiktoren einer verringerten HQRQoL der Geschwister von Kindern mit AHF handelt.

Trotz der relevanten Beeinträchtigungen, die Beitrag I (Schamong et al., 2021) zufolge bis zu einem Drittel der Geschwister von Kindern mit AHF im psychosozialen Wohlbefinden und ihrer LQ erfahren sowie der unterdurchschnittlichen und signifikant niedrigeren gesamt- und domänenspezifischen HRQoL im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes (Beitrag III; Schamong et al., 2023 subm), existieren keine Interventionen, die direkt auf die Verbesserung dieser Konstrukte bei Geschwistern von Kindern mit AHF abzielen (Schamong et al., 2021). Zwar konnten die zwei identifizierten Interventionsstudien aus Beitrag I (Schamong et al., 2021) erste Anhaltspunkte für die Unterstützung von Geschwistern mit AHF liefern, da sie Geschwister von Kindern mit AHF entweder miteinbezogen (Van der Mheen et al., 2019), oder zumindest berücksichtigen (Redshaw & Wilson, 2012), jedoch zielten sie nicht direkt auf deren Unterstützung ab. Nichtsdestotrotz machen ihre Ergebnisse deutlich, dass Geschwister von Gesprächsangeboten profitieren, bei denen es ihnen ermöglicht wird, aus ihrer Perspektive über ihre Gefühle und Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF zu



sprechen (Redshaw & Wilson, 2012; Van der Mheen et al., 2019) und die Eltern ihnen erklärten, was genau bei den Behandlungen passierte (Redshaw & Wilson, 2012). Diese Ergebnisse decken sich mit Studien zu Geschwistern von Kindern mit AHF und anderen chronischen Erkrankungen wie beispielsweise Krebs (Bichard et al., 2022; Feriante et al., 2022; Hartling et al., 2014; Sloper, 2000; Vella Gera et al., 2021), und einer systematischen Übersichtsarbeit und Metaanalyse zu Auswirkungen von Maßnahmen zur Steigerung des Wohlbefindens von Geschwistern von Kindern mit chronischen Erkrankungen, die aufzeigte, dass Krankheitswissen die Krankheitsbewältigung über den Zugewinn an subjektiv erlebter Kontrolle erleichtert (McKenzie Smith et al., 2018). Zusätzlich ergab sich die Vermutung, dass die Gespräche und die mit den Geschwistern verbrachte Zeit, die Eltern für die Themen und Probleme der Geschwister sensibilisierten (McKenzie Smith et al., 2018). Auch die Ergebnisse von Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) weisen auf einen positiven Effekt von offener Kommunikation über die Erkrankung, die damit verbundenen Gefühle und Erfahrungen sowie die Vermittlung von Krankheitswissen hin, worauf im nächsten Punkt näher eingegangen wird.

Neben diesen wichtigen Erkenntnissen blieb jedoch weiterhin unklar, ob die Geschwister von Kindern mit AHF selbst sich überhaupt für die Teilnahme an einer unterstützenden Intervention interessieren und wenn ja, welche Art von Unterstützung sie nach eigenen Angaben benötigen (Schamong et al., 2021). So wurden mit den bisherigen quantitativen Ansätzen die mit der AHF-Diagnose verbundenen krankheitsspezifischen Erfahrungen der Geschwister, wie ihre Sorgen und Belastungen, aber auch mögliche positiven Konsequenzen von AHF sowie die bereits existierenden Bewältigungsmechanismen der Geschwister im Umgang mit den AHF noch nicht erforscht. Diese Informationen bergen jedoch das Potenzial, die Beeinträchtigungen in den in Beitrag I und III (Schamong et al., 2023 subm; Schamong et al., 2021) untersuchten Konstrukten der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF inhaltlich zu erklären sowie eine bedürfnisorientiertes, krankheitsspezifisches Unterstützungsangebot für Geschwister von Kindern mit AHF zu entwickeln und wurden daher im Rahmen einer Interviewstudie in Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) exploriert.

### ***8.1.2 Anteil von Beitrag II zur Beantwortung der übergeordneten Fragestellung der monografischen Dissertation mit Teilpublikationen***

In Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) wurden daher im Rahmen einer qualitativen Interviewstudie mit Geschwister-Eltern-Dyaden erstmalig Erfahrungen erforscht, die negativ und positiv mit der AHF-Diagnose von Geschwistern in Zusammenhang stehen. Des Weiteren wurden eventuelles Unterstützungsinteresse und die Art des Unterstützungsbedarfes der Geschwister von Kindern mit AHF untersucht. Die Studie ergab, dass Geschwister von Kindern mit AHF im Allgemeinen ein Fortschreiten der Erkrankung, bis hin zum Tode des Kindes mit AHF befürchteten, Angst vor einem (weiteren) Krankenhausaufenthalt des Kindes mit AHF hatten und unsicher waren, ob sie den Gesundheitszustand

ihrer Geschwister richtig einschätzen konnten (Schamong et al., 2022 subm). Da auch in der Interviewstudie nur Geschwister von Kindern mit moderaten und komplexen AHF teilnahmen, ging dies vermutlich darauf zurück, dass insbesondere diese Formen von AHF im Vergleich zu anderen potenziell tödlichen Erkrankungen wie pädiatrischem Krebs (Chakumatha et al., 2020) nie vollständig ‚heilbar‘ sind (Bhatt et al., 2015) und sich jederzeit erneuter invasiver Behandlungsbedarf, beispielsweise aufgrund von notwendigem Ersatz einer Herzklappe bis hin zu akut lebensbedrohlichen Krisen, wie schweren Herzrhythmusstörungen oder eine Endokarditis, entwickeln kann (Cahill et al., 2019). Dies kann wiederum zu großen Ängsten und Verunsicherung unter den Geschwistern führen (Schamong et al., 2022 subm). Auch befürchten die Geschwister, dass das Kind mit AHF von Gleichaltrigen beschämt oder ausgeschlossen werden könnte (Schamong et al., 2022 subm). Dass Kinder mit moderaten sowie komplexen AHF ein deutlich erhöhtes Risiko für Entwicklungsstörungen tragen, die sich negativ auf ihr Verhalten, ihre psychosozialen Funktionen, ihre schulischen Leistungen und ihre gesamt-LQ auswirken (Hövels-Gürich & Latal, 2021), stellt eine nachvollziehbare Erklärung für diese Befürchtungen dar.

Die Geschwister waren zudem durch die ständigen Sorgen der Eltern um das Kind mit dem AHF belastet und erfuhren verringerte elterliche Aufmerksamkeit und Unterstützung sowie eingeschränkte Familienaktivitäten, wenn ein Elternteil oder gar beide Eltern das Kind mit dem AHF bei Behandlungen begleiteten (Schamong et al., 2022 subm), was sich mit den Ergebnissen von Beitrag I (Schamong et al., 2021) und weiterer Forschung zu Geschwistern von Kindern mit chronischen Erkrankungen (Barlow & Ellard, 2006; Gan et al., 2017; La Clare, 2013) deckt. Aus Angst vor einer Corona-Infektion restringierten die Eltern, dass Geschwister sich mit Freunden trafen und unterbanden somit deren bereits erfolgreich angewendeten Coping-Strategien (Schamong et al., 2022 subm). Die von dem Kind mit AHF geäußerten Ängste und Fragen zum AHF belasteten die Geschwister zusätzlich und die Geschwister übernahmen während der Krankenhausaufenthalte teilweise elterliche Aufgaben. Sie verloren zeitgleich für einen unabsehbaren Zeitraum ihre gewohnte Routine und häufig auch ihre primäre Bindungsperson (Schamong et al., 2022 subm). Diese Mehrfachbelastung in Kombination mit der Verhinderung von Bewältigungsstrategien könnte laut den Äußerungen der Eltern in der Interviewstudie Gefühle von Hilflosigkeit, Entwicklungsverzögerungen oder Unreife bei den Geschwistern und negative Auswirkungen des AHF auf die Geschwisterbeziehung erklären (Schamong et al., 2022 subm). Im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit AHF erleben Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen, wie beispielsweise Typ-1-Diabetes (DiMeglio et al., 2018) oder neurologischen Erkrankungen (Lawal et al., 2014; Williams et al., 1993), weniger elterliche Abwesenheit und Verlust an Routine durch wiederholte Krankenhausaufenthalte, einhergehend mit Verlust der primären Bezugsperson, vorübergehender Übernahme elterlicher Pflichten sowie einer besonders hohen psychischen Belastung der Eltern aufgrund des Anforderungsprofils der Versorgung des Kindes mit dem AHF (Biber et al., 2019; Schamong et al., 2022 subm). So tritt Typ-1-Diabetes beispielsweise selten vor dem Alter von sieben

Jahren auf, ist nicht mit langen oder wiederholten Krankenhausaufenthalten ab der Geburt des erkrankten Kindes verbunden und kann regulär außerhalb des Krankenhauses behandelt werden (DiMiglio et al., 2018). Im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes ist es für Geschwister von Kindern mit AHF daher weniger wahrscheinlich, dass sie von ihren Eltern ausreichend Aufmerksamkeit und Unterstützung erhalten, wenn sie diese aufgrund ihrer eigenen Ängste und Sorgen am meisten benötigen. Andere, bereits zuvor erwähnte chronische Erkrankungen des Kindes- und Jugendalters, wie beispielsweise Krebs, können zwar ebenfalls tödlich enden, sind aber im Vergleich zu moderaten und komplexen AHF in bis zu 80% der Fälle vollständig heilbar und bestehen auch nicht ab Geburt des erkrankten Kindes (Rodriguez-Galindo et al., 2015). Geschwister von Kindern mit Typ-1-Diabetes und Mukoviszidose, die im Vergleich zu Krebs nicht-heilbare Erkrankungen darstellen, werden im Vergleich zu Kindern mit AHF zu Hause täglich mit der Behandlung der Erkrankung konfrontiert, was ihnen ein gewisses Gefühl der Kontrolle vermitteln kann, da sie automatisch mehr Krankheitsverständnis erwerben und gelernt haben, was sie tun können, um bei der Pflege ihres Geschwisterkindes aktiv helfen zu können (Herrman, 2010; McKenzie Smith et al., 2018). Schließlich gab eine Schwester an, dass sie verlängerte Familienmahlzeiten belasteten. Da Fütterungs- und Essprobleme, wie bereits erwähnt, ein häufiges Phänomen bei Kindern mit AHF sind und auch eine große Belastung für die Eltern darstellen, bergen gemeinsame Mahlzeiten dadurch ein tägliches Konfliktpotential, bei einer Aktivität, die die Familie eigentlich näher zusammenbringen sollte (Clemente et al., 2001; de Man et al., 2021). Zusammengefasst sind dies potenzielle Erklärungen, weshalb Geschwister von Kindern mit AHF die negativen Auswirkungen der Erkrankung im Vergleich zu Geschwistern von Kindern mit Krebs, Typ-1-Diabetes und Mukoviszidose am höchsten bewerten (Havermans et al., 2015) und könnten die Ergebnisse hinsichtlich der eingeschränkten gesamt- und domänenspezifischen HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF aus Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) erklären.

In Ergänzung zu den vorab genannten negativen Erfahrungen wurden auch zahlreiche positive Erfahrungen der Geschwister im Zusammenhang mit dem AHF genannt (Schamong et al., 2022 subm). Als positive Konsequenzen des AHF wurde ein starker Familienzusammenhalt angegeben, was die Ergebnisse einer weiteren Studie über Geschwister von Kindern mit AHF repliziert (Bichard et al., 2022), sowie verstärkte Empathie und persönliche Reifung der Geschwister, was sich mit den Ergebnissen weiterer Studien über Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen deckt (Alderfer et al., 2010; Brennan et al., 2013; Niinomi & Fukui, 2022; Piamjariyakul et al., 2010; Wilkins & Woodgate, 2005). Darüber hinaus besaßen die Geschwister laut der Aussagen ihrer Eltern zusätzliche, beachtliche persönliche Ressourcen und Kompetenzen, wie die Wertschätzung der eigenen Gesundheit sowie emotionale Stärke und Achtsamkeit. Diese könnten durch ein mögliches posttraumatisches Wachstum erklärt werden, das sich in manchen betroffenen Familien auch positiv auf die Geschwister auszuwirken schien, indem sich ihre Widerstandsfähigkeit angesichts der Widrigkeiten der Erkrankungen erhöhte (Berger & Weiss, 2009).

Die Bewältigung der Erkrankung wurde den Geschwistern durch die Vermittlung von Wissen über die Behandlung und Prognosen von AHF, Kontakt, Unterstützung und Empathie durch Gleichaltrige und Familienangehörige, gemeinsame Familienaktivitäten sowie durch jegliche Form der Ablenkung erleichtert. Auch die altersgerechte Entwicklung des Kindes mit AHF, die Entlastung der Geschwister von zusätzlichen Aufgaben im Haushalt und der Geschwisterbetreuung während Krankenhausaufenthalten des Kindes mit AHF sowie das Einbeziehen der Geschwister in die Planung zukünftiger Behandlungen erleichterten den Geschwistern in Einklang mit den Ergebnissen von Untersuchungen zu Geschwistern mit anderen chronischen Erkrankungen die Bewältigung des AHF (Feriante et al., 2022; Hartling et al., 2014). Außerdem decken sich diese Aspekte weitgehend mit klassischen Resilienzfaktoren wie Stabilität in Form von verlässlichen Beziehungen und einem verlässlichen Umfeld, Kommunikation-, Problemlösungs- und Planungsfähigkeiten sowie einem daraus erwachsenden Selbstvertrauen (Werner, 2013).

Mit Rückbezug auf die Forschungsfrage nach dem Unterstützungsbedarf der Geschwister von Kindern mit AHF, liegt ein besonderer Schwerpunkt der Arbeit auf der Entwicklung konkreter Perspektiven zur Verbesserung ihrer LQ. In Übereinstimmung mit dem aus den Ergebnissen von Beitrag I und III (Schamong et al., 2021; Schamong et al., 2023 subm) gewonnenen Erkenntnissen zu Beeinträchtigungen der LQ und dem daraus indirekt deutlich gewordenen, erhöhten Unterstützungsbedarf der Geschwister äußerten die Geschwister in Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) erstmalig direkt ihr großes Interesse an der Teilnahme an einer auf ihr AHF-spezifisches Profil von Sorgen und Belastungen zugeschnittenen Unterstützungsmaßnahme. Auch wurde speziell von Elternseite das generelle Fehlen jeglicher Unterstützung für Geschwister von Kindern mit AHF bemängelt.

Inhaltlich äußerten die Geschwister Interesse an Unterstützung durch Ratschläge zum Umgang mit ihren Sorgen und Belastungen, Austausch mit und Empathie von gleichaltrigen Betroffenen sowie medizinische Erklärungen zu den AHF-Diagnosen und Prognosen (Schamong et al., 2022 subm), was sich weitgehend mit den Ergebnissen von Forschung hinsichtlich des Unterstützungsbedarfes von Geschwistern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen und Behinderungen (Arnold et al., 2012; Hanvey et al., 2022; Malcolm et al., 2014) und bereits existierenden Interventionen für betroffene Geschwister deckt (Ernst et al., 2020; Roberts et al., 2015; Roberts et al., 2016). Zudem deutet vorhandene Literatur darauf hin, dass das Fehlen sozialer Unterstützung durch andere, die ähnliche Erfahrungen gemacht haben, zu Gefühlen sozialer Isolation, Stress und negativen Auswirkungen auf die psychische Gesundheit führen kann (Bellin & Kovacs, 2006; Condon, 2010; Simich et al., 2003). Passend zu diesem Themenkomplex schlugen die Eltern vor, die Geschwister mit jungen Erwachsenen mit AHF zusammenzubringen, um positive Entwicklungsbeispiele zu geben und die Geschwister darin zu unterstützen, sich für ihre eigenen Bedürfnisse einzusetzen (Beitrag II; Schamong et al., 2022 subm).

Die Präferenzen hinsichtlich der Gruppenzusammensetzung und Gruppengröße variierten stark und beinhalteten unterschiedliche Konstellationen von Teilnehmenden. Sie reichten von einer Intervention exklusiv für Geschwister, bis hin zum Einschluss aller Mitglieder der Kernfamilie (Geschwister, Eltern und Kinder mit AHF) sowie einer Anzahl von fünf bis 15 Teilnehmenden (Schamong et al., 2022 subm). Sowohl Eltern als auch Geschwister wünschten sich, dass die Intervention von zwei bis drei Personen geleitet wird, wobei Geschwister sich vorstellten, dass ärztliche Mitarbeitende ihnen Krankheitswissen zu Diagnosen und Prognosen vermitteln, während Eltern therapeutische Einheiten mit sozialpädagogischen und psychologischen Mitarbeitende vorschlugen (Schamong et al., 2022 subm). Die meisten Geschwister wünschten sich persönliche Unterstützung oder abwechselnde Online- und Präsenzsitzungen, die regelmäßig, zumindest aber alle drei bis vier Wochen stattfinden und mindestens anderthalb Stunden dauern sollten, aber auch länger dauern könnte, angepasst an die Bedürfnisse der Teilnehmenden. Die Eltern schlugen hingegen eine Dauer von mehreren Stunden bis hin zu einem ganzen Tag vor, da sie offenbar die Belastungen und Themen, die die Geschwister zu besprechen hatten, als noch zeitaufwändiger einschätzten (Schamong et al., 2022 subm). Bezüglich der Gesamtdauer der Intervention variierten die Antworten unter Eltern und Geschwistern stark von drei bis vier Sitzungen insgesamt, einem Wochenende, einer Woche, regelmäßigen Treffen über einen Zeitraum von vier Monaten bis hin zu einer Langzeitbegleitung über mehrere Jahre (Schamong et al., 2022 subm). Hieraus wird erneut deutlich, dass die Geschwister und Eltern unterschiedliche Perspektiven einnehmen und die Eltern die Belastungen der Geschwister als intensiver und psychologisch tiefgreifender einschätzten, während der Bedarf der Geschwister in praktischer Unterstützung und Wissensvermittlung bestand.

Zusammengenommen beinhalten die Ergebnisse aller drei Forschungsbeiträge neben dem bisher dargelegten Erkenntnisgewinn auch Implikationen für zukünftige Forschung hinsichtlich der Entwicklung einer supportiven Intervention für Geschwister von Kindern mit AHF, die im Folgekapitel detailliert aufgeführt werden.

## **8.2 Implikationen für zukünftige Forschung hinsichtlich der Entwicklung einer supportiven Intervention für Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehlern**

Die Ergebnisse einer systematischen Übersichtsarbeit über Geschwister von Jugendlichen mit Entwicklungsstörungen legten die Notwendigkeit der Identifikation krankheitsspezifischer Themen und Bedürfnisse nahe, um Geschwister von Kindern mit chronischen Erkrankungen bestmöglich unterstützen zu können (Tudor & Lerner, 2015). Diese, bis dato für AHF unerforschten Aspekte, wurden im Rahmen von Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) exploriert.

### **8.2.1 Ermittlung krankheitsspezifischer Themenbereiche**

Wie bereits mehrfach angeführt, resultierten aus Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) zahlreiche mit der Erkrankung in Verbindung stehende Sorgen und Belastungen, aber auch positive Konsequenzen der Erkrankung und Bewältigungsmechanismen der Geschwister sowie ein hoher Unterstützungsbedarf und vielfältige Themen von Interesse. Diese Bereiche sollten nun konsequenterweise an einer großen Gruppe von Geschwistern von Kindern mit AHF abgefragt werden und mit einer großen Gruppe von Geschwistern von Kindern mit einer anderen chronischen Erkrankung, wie beispielsweise Typ 1 Diabetes, verglichen werden. Auf Basis dieser Untersuchung könnte dann ermittelt werden, welche Themen spezifisch für AHF sind, um daraus Elemente einer dringend benötigten, maßgeschneiderten Intervention zu entwickeln (Tudor & Lerner, 2015), die den Bedürfnissen des größtmöglichen Anteils der Geschwister entspricht. Dabei soll der Fokus auf der Verbesserung der LQ der Geschwister und besonders auf der am stärksten eingeschränkten Domäne des psychologischen Wohlbefindens liegen (Schamong et al., 2023 subm).

### **8.2.2 Potenzielle Elemente einer zukünftigen supportiven Intervention für Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehlern**

Insgesamt waren die Wahrnehmung der Geschwister und Eltern für die Bedürfnisse der Geschwister in Bezug auf die Inhalte und Rahmenbedingungen einer potenziellen Intervention laut Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) nicht immer einheitlich. Daher sollte Eltern Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) zufolge im Rahmen zukünftiger Interventionen vermittelt werden, wie sie die Geschwister bestmöglich unterstützen, indem sie mit ihnen offen über ihre Erfahrungen mit AHF kommunizieren und sie in die Planung von weiteren Behandlungen, wie Krankenhausaufenthalten, einbinden. Auf diese Weise könnten die Geschwister eine aktive Rolle bei der Bewältigung ihrer Situation einnehmen, elterliche Empathie und Verständnis für ihre Sorgen und Belastungen erfahren und ermutigt werden, sich für ihre Bedürfnisse einzusetzen, was auch die Ergebnisse der beiden Interventionsstudien des systematischen Reviews (Beitrag I: Schamong et al., 2021) von Redshaw und Wilson (2012) und van der Mheen und Kollegen (2019) nahelegen. Die Eltern für die Hauptsorgen und -Belastungen der Geschwister zu sensibilisieren, um somit einem erlebten Verlust von Routine (Schamong et al., 2022) und potenziellem Bindungsabbruch (Bowlby & Bowlby, 2012) bei einem Krankenhausaufenthalt des Kindes mit AHF vorzubeugen, ist gerade deshalb so wichtig, weil die vorliegenden Ergebnisse, unterstützt durch die Forschung von Caris und Kollegen (2018) zeigen, dass die Wahrnehmungen von Geschwistern und Eltern sich unterscheiden. Jedoch ergänzten die Eltern im Rahmen der Interviewstudie (Beitrag II; Schamong et al., 2022) lediglich die Aussagen der Geschwister und widersprachen ihnen nicht, was wiederum dafürspricht, dass die Eltern die Belange der Geschwister zwar grundsätzlich erkennen, aber deren Relevanz anders gewichten. Auch die Ergebnisse von Beitrag III (Schamong et al., 2023)

sprechen dafür, da die Geschwister den höchsten HRQoL Durchschnittswert aller fünf HRQoL-Domänen in der Subdomäne Autonomie und Eltern erzielten, was darauf hindeutet, dass sie in diesem Aspekt am wenigsten belastet sind. Die Wirksamkeit der intendierten Sensibilisierungs- und Beratungsmaßnahmen der Eltern auf die LQ der Geschwister sollte anschließend evaluiert werden.

### **8.2.3 *Potenzielle Interventionselemente, die auf weibliche Geschwister und Geschwister von Kindern mit sichtbaren angeborenen Herzfehlern abzielen***

Zudem sollten auch Interventionselemente zur Unterstützung weiblicher Geschwister entwickelt und getestet werden, die auf die Bewusstmachung (Perry & Pauletti, 2011) und die Entkräftung von Rollenklischees und Stereotypen abzielen, wie Aufklärung (Johns et al., 2005) mit zugehörigem ‚Storytelling‘ und kritischen Rollenspielen (Poto, 2023). Das Interventionsspektrum sollte auch durch Übungen zur Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit sichtbaren AHF erweitert werden, wie beispielsweise ‚Empowerment‘ und ‚Role-Modeling-Techniken‘, in denen ältere Geschwister mit adaptiven Bewältigungsstilen als Vorbilder dienen (Bagai & Erratt, 2019), deren Auswirkungen dann ebenfalls evaluiert werden sollten. Dies ist empfehlenswert, da es sich bei weiblichem Geschlecht und Sichtbarkeit der Erkrankung um die in Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) ermittelte Prädiktoren verminderter Gesamt-HRQoL von Geschwistern von Kindern mit AHF handelt.

Zur Untersuchung weiterer potenzieller Prädiktoren, die im Rahmen von Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) getestet wurden, aber nicht das Signifikanzniveau erreichten, wie ein höheres Alter der Geschwister, eine höhere Position in der Geschwisterreihenfolge und größere Komplexität der AHF, sollten ausgewogenere Stichproben untersucht werden, die zu gleichen Anteilen Geschwister von Kindern mit simplen, moderaten und komplexen AHF sowie ältere und jüngere Geschwister und eine größere Altersspanne, bzw. alle Stufen der Adoleszenz, miteinbeziehen. Auch weitere mit psychosozialen Wohlbefinden der Geschwister assoziierte Faktoren, die im Rahmen von Beitrag I (Schamong et al., 2021) identifiziert wurden, wie vorherige Fehlgeburten in der Familie, Geschwisterverlust und ein niedriger sozioökonomischer Status der Familie, die aber aus methodischen Gründen nicht in Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) untersucht wurden, sollten weiter erforscht werden.

### **8.2.4 *Erforschung der Bewältigungsstrategien und Ressourcen der Geschwister im Sinne potenzieller Schutzfaktoren***

Eine zentrale Rolle für eine zukünftige, passgenaue Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit AHF spielen vor allem die in Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) ermittelten, bereits erfolgreich angewendeten Bewältigungsstrategien und Ressourcen der Geschwister. Genannt wurden hier die Nutzung von Wissen über die Behandlung und Prognosen von AHF, offene Kommunikation mit sowie Empathie von gleichaltrigen Betroffenen, Eltern und Verwandte, gemeinsame Familienaktivitäten sowie jegliche Form der Ablenkung, die Entlastung der Geschwister von Aufgaben wie beispielsweise

Hausarbeit und Geschwisterbetreuung während Krankenhausaufenthalt des Kindes mit AHF und das Einbeziehen der Geschwister in die Planung zukünftiger Behandlungen (Schamong et al., 2022 subm). Diese Aspekte stehen zudem in Einklang mit den Ergebnissen von Untersuchungen zu Geschwistern mit anderen chronischen Erkrankungen (Feriante et al., 2022; Hartling et al., 2014) und decken sich weitgehend mit klassischen Resilienzfaktoren wie Stabilität in Form von verlässlichen Beziehungen und einem verlässlichen Umfeld, Kommunikation-, Problemlösungs- und Planungsfähigkeiten sowie daraus resultierendem Selbstvertrauen (Werner, 2013). Zusätzlich könnten die genannten Ressourcen der Geschwister als Interventionselement besprochen, oder visuell und auditiv dargeboten werden und somit im Sinne von positivem Priming aktiviert und verstärkt werden (Yao & Wang, 2014).

Weitere Evidenz für das Vorhandensein und die Wirksamkeit potenzieller Schutzfaktoren liefern die Ergebnisse von Beitrag I (Schamong et al., 2021), da bis zu zwei Drittel der Geschwisterkinder keine Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens oder der LQ aufwiesen. Zudem war das psychosoziale Wohlbefinden bei einem höheren Prozentsatz (bis zu 40%) der Geschwister von Kindern mit AHF beeinträchtigt als die LQ (bis zu 33%), was darauf hindeutet, dass Faktoren, die bereits von den LQ-Fragebögen der Originalstudien erfasst wurden, wie beispielsweise eine starke schulische Bindung oder enge familiäre oder freundschaftliche Beziehungen, als Schutzfaktoren wirken, die im Sinne von Resilienzfaktoren die Belastungen der Geschwister abmildern (Werner, 2013). Der Nutzen dieser potenziell protektiven Faktoren könnte im Rahmen von künftigen Studien mit Varianz- oder Regressionsanalysen mit Pfadmodellen analysiert werden.

### **8.2.5 Spezifizierung bereits bestehender Angebote für Geschwister**

Bereits bestehende Geschwisterangebote zielen im Einklang mit den Ergebnissen der vorliegenden Arbeit auf eine Stärkung der Bewältigungsstrategien und Ressourcen ab. Für Deutschland ist die Studienlage jedoch dünn und es liegen bisher nur Ergebnisse zum Lebenskompetenztraining „Supporting Siblings“ (Kowalewski et al., 2014) und zum „Resilienzförderungsprogramm Geschwister-TREFF“ (Engelhardt-Lohrke et al., 2020) vor, die zwar vielversprechende Resultate erbrachten, deren Wirksamkeit jedoch noch nicht an einer größeren Stichprobe evaluiert wurden. Kurze Geschwisterangebote, die ähnlich wie Schulungen für Betroffene sowohl Wissen zur Krankheit vermitteln als auch die psychosoziale Situation der Familie thematisieren, fehlten bislang (Ernst et al., 2020). Passend zu diesen Ergebnissen und den Resultaten einer systematischen Übersichtsarbeit und Metaanalyse zu Auswirkungen von Maßnahmen zur Steigerung des Wohlbefindens von Geschwistern von Kindern mit chronischen Erkrankungen (McKenzie Smith et al., 2018), vermittelt der deutschsprachige „ModuS-Geschwisterworkshop“ Krankheitswissen und Bewältigungsstrategien. Er beinhaltet beispielsweise Übungen zur Stärkung des Selbstwertgefühls, um den Stress von Geschwistern chronisch kranker Kinder zu reduzieren, während gleichzeitig die Eltern für die Bedürfnisse der Geschwister sensibilisiert werden. Zusätzlich wurden im Rahmen des Workshops die Geschwister und die Eltern mithilfe von



Visualisierungsübungen auf Whiteboards angeleitet, potenzielle Helfer in ihrem sozialen Umfeld, symbolisiert durch selbst beschriftete Hände aus Karton, und eigene Ressourcen und Stärken, symbolisiert durch selbst beschriftete Ballons aus Karton zu benennen und zu aktivieren. Die Hände trugen dann die Krankheitslast, symbolisiert durch einen mit Steinen gefüllten Sack aus Karton, während die Ballons diesen zeitgleich nach oben zogen und somit leichter tragbar machten. Die Steine symbolisierten wiederum die Belastungen durch die Erkrankung und wurden ebenfalls von den Teilnehmenden selbst beschriftet (Ernst et al., 2020). Durch die Teilnahme an dem Workshop verringerte sich das Risiko für psychische Belastungen und Auffälligkeiten der Geschwister und die familiäre Belastung signifikant. Auch verbesserte sich die LQ der Geschwister in der Selbsteinschätzung (Ernst et al., 2020). Der Workshop wurde von der „Elterninitiative herzkranker Kinder Köln e.V.“ bereits einmal für Geschwister für Kinder mit AHF und deren Eltern durchgeführt und soll im August 2024 erneut angeboten werden. Er könnte im Sinne der ‚Best Practice‘ als Erfolgsmodell dienen, welches durch die in Beitrag II (Schamong et al., 2022) identifizierten AHF-spezifischen Themen und bereits erfolgreich angewandte Bewältigungsmechanismen der Geschwister ergänzt werden könnte und in einer künftigen Studie an Geschwistern von Kindern mit AHF evaluiert werden sollte.

Zusätzlich zu den hier genannten Ansatzpunkten für zukünftige Untersuchungen bieten die Ergebnisse der drei Forschungsbeiträge auch praktische Implikationen, die direkt in die Beratung und Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit AHF einfließen sollten und im nächsten Kapitel beleuchtet werden.

### **8.3 Implikationen für die praktische Unterstützung von Geschwister von Kindern mit angeborenen Herzfehlern und ihren Familien**

Da Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) ermittelte, dass das psychologische Wohlbefinden der Geschwister unter allen HRQoL-Domänen am stärksten eingeschränkt war, ist es dringend notwendig dort anzusetzen. Die Ergebnisse der vorliegenden Forschungsarbeit decken sich zudem mit einem systematischen Review (McKenzie Smith et al., 2018) und Originalstudien zu Geschwistern von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen und Behinderungen (Alderfer & Hodges, 2010; Hallion et al., 2018) und deuten darauf hin, dass die gezielte Erhaltung und Förderung der psychischen Gesundheit der Geschwister eine zentrale Aufgabe in der Unterstützung dieser bisher kaum beachteten Gruppe ist. Dass ein hoher Anteil an Erwachsenen mit Geschwistern mit einer chronischen Erkrankung oder Behinderung von psychischen Erkrankungen betroffen ist, unterstreicht die Notwendigkeit präventiver Arbeit, um sicherzustellen, dass die Geschwister bei der Entwicklung individueller und krankheitsspezifischer Ressourcen und Bewältigungsstrategien optimal begleitet und unterstützt werden (Hallion et al., 2018). Wie dies im medizinischen Bereich, ihrem sozialen Umfeld und mithilfe der Eltern umgesetzt werden könnte, wird im in diesem Kapitel aufgeführt.

### **8.3.1 Unterstützungsmöglichkeiten im medizinischen Bereich**

Zunächst ist anzumerken, dass Geschwister von Kindern mit einer chronischen Erkrankung oder Behinderung generell in den Versorgungsprozess miteinbezogen werden sollten, da die Familie als Einheit zu verstehen ist, in der jedes Mitglied gleichermaßen von den Auswirkungen der Erkrankung betroffen ist (Burton, 2022; La Clare, 2013; Sloper, 2000; Thompson, 2009). Bisher liegt der Fokus des Behandlungsteams und der Eltern bei chronischen Erkrankungen im Kindesalter hauptsächlich auf der Versorgung des erkrankten Kindes (Hanvey et al., 2022; Naylor & Prescott, 2004; Sloper, 2000). Daher ist es unabdingbar, dass sich Kostenträger im Gesundheitswesen sowie Mitarbeitenden im kinder-kardiologischen Bereich die Bedürfnisse gesunder Geschwister bewusst machen und einen ganzheitlicheren Unterstützungsansatz implementieren, indem sie die Bedingungen schaffen, Geschwister und deren Eltern bei Belastungserleben zu unterstützen. So sollten die bereits in einigen Einrichtungen vorhandenen Unterstützungsangebote für Angehörige von Kindern mit AHF, wie psychosoziale Beratung und Begleitung in Akut- und Rehakliniken, gestärkt und ausgebaut werden.

Zudem sollten die Behandelnden die betroffenen Familien ermutigen, bereits bestehenden Angeboten wahrzunehmen, um ihr psychologisches Wohlbefinden zu verbessern und dauerhaft zu erhalten (Hallion et al., 2018). An dieser Stelle könnten die bereits erfolgreich angewandte Bewältigungsmechanismen und Kompetenzen der Geschwister sowie die von ihnen benannten positiven Konsequenzen der AHF, auch praktisch, im Rahmen einer krankheitsspezifischen sowie ressourcenorientierten und ressourcenaktivierenden Beratung für Geschwister von Kindern mit AHF und ihren Eltern eingesetzt werden, deren Inhalte im Kapitel 8.3.3 näher erläutert werden. Diese könnte den hoch belasteten Eltern bereits ab Diagnosestellung, zusätzlich Strategien an die Hand geben, ihren gesunden und erkrankten Kindern bestmöglich gerecht zu werden (Hallion et al., 2018). Um auch im ambulanten Bereich eine dauerhafte Unterstützung der Geschwister von Kindern mit komplexeren AHF nebst ihren Eltern sicherzustellen, könnten die Geschwister regelhaft an sozialpädiatrische Zentren im ambulanten Bereich von Kinderkliniken angebunden werden. Dies würde ermöglicht, wenn niedergelassenen kinderärztliche Praxen entsprechende Überweisungen im Falle von psychologischen Schwierigkeiten oder Entwicklungsstörungen der Geschwister ausstellen würden, wie es die deutsche Gesellschaft für pädiatrische Kardiologie bereits für Kinder mit ,Einkammerherzen‘ empfiehlt (Hager, 2013).

Es sollte zudem im Versorgungsprozess besonderes Augenmerk auf weibliche Geschwister gelegt werden, da weibliches Geschlecht Beitrag III zufolge als Prädiktor verminderter HRQoL bei Geschwister von Kindern mit AHF identifiziert wurde (Schamong et al., 2023 subm). Das Aufdecken, kritische Hinterfragen sowie Diskutieren von weiblichen Rollenklischees mit psychosozialen Mitarbeitenden könnte dazu beitragen, die Aktivierung unbewusster Geschlechterstereotypen und somit eine unausgewogene Übernahme von Sorgearbeit durch weibliche Geschwister zu verringern (Perry & Pauletti, 2011). Eine Studie zum sogenannten ,stereotype threat‘, der Bedrohung durch kulturell weit verbreitete Stereotype wie beispielsweise das geringe mathematische Talent von Mädchen und Frauen, gibt

Anlass zu der Annahme, dass Aufklärung über die Bedrohung durch Stereotype ein praktisches Mittel zur Verringerung ihrer schädlichen Auswirkungen ist (Johns et al., 2005).

Die Sichtbarkeit der Erkrankung als weiterer Prädiktor reduzierter HRQoL, der in Beitrag III (Schamong et al., 2023 subm) identifiziert wurde und die in Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) direkt geäußerten Sorgen der Geschwister vor dem Fortschreiten der Erkrankung bis hin zum Tod des Kindes mit AHF symbolisieren auf zwei unterschiedliche Arten Zukunfts- und Progredienzängste der Geschwister. Diese Befürchtungen könnten bei Geschwistern von Kindern mit AHF durch die Vermittlung von krankheitsspezifischem medizinischem Wissen, insbesondere zu aktuellen (Ernst et al., 2020), aber auch zukünftigen, sich noch in der Erprobungsphase befindlichen, aber aussichtsreiche Behandlungsmöglichkeiten, adressiert werden (Mirani et al., 2021). Von ärztlichen und psychosozialen Mitarbeitenden auf kinder-kardiologischen Stationen, in Rehakliniken und niedergelassenen Praxen, könnte bei Gesprächsangeboten für Familien medizinisches Wissen, unterstützt durch Infomaterial in Form von Flyern oder Broschüren zum Mitnehmen und späteren Nachlesen, vermittelt werden. Neben Informationen zu den verschiedenen AHF-Diagnosen und bereits bestehenden Behandlungsmöglichkeiten könnte zusätzlich von vielversprechenden Forschungen zu im Labor gezüchteten Herzklappen berichtet werden, die aus Gerüsten von Biomaterialien und Empfängerzellen bestehen und daher im Gegensatz zu bisherigem Klappenersatz mitwachsen, vom Körper des Empfängers nicht angegriffen werden und dadurch nicht mehr ausgetauscht werden müssen (Mirani et al., 2021). Auch wenn diese Technik noch nicht ausgereift ist, wird den Geschwistern dadurch verdeutlicht, wie sich die Behandlung des Kindes mit dem AHF durch bereits erreichte medizinische Standards und den zu erwartenden medizinischen Fortschritt stetig verbessern wird. Dieser Ansatz deckt sich außerdem mit den Ergebnissen anderer Studien, in denen die Ängste und Sorgen der Geschwister durch medizinische Informationen über AHF und andere chronische Erkrankungen reduziert werden konnten (Gramszlo et al., 2020; McKenzie Smith et al., 2018; Vella Gera et al., 2021).

Eine weitere Sorge der Geschwister bezog sich laut Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) auf die Angst vor Krankenhausaufenthalt, welche vermindert werden könnte, indem durch die zuvor genannten medizinischen Informationen die Angst der Geschwister den Gesundheitszustand des Kindes mit AHF nicht richtig einzuschätzen, verringert wird (Gramszlo et al., 2020; McKenzie Smith et al., 2018; Vella Gera et al., 2021). Zugleich sollte das Geschwisterkind in den Aufklärungsprozess ab Diagnosestellung und in die Planung des Krankenhausaufenthaltes in altersgerechter Weise miteinbezogen werden, um die Gelegenheit zu bekommen, vergleichbar zu Kindern mit Typ1-Diabetes oder Mukoviszidose (Herrman, 2010; McKenzie Smith et al., 2018), aktiv an der Bewältigung der Situation zu partizipieren (Schamong et al., 2022 subm). Hierzu könnten die Familien bereits von den diagnosestellenden Mitarbeitenden aus der Pränatalmedizin an psychosoziale Mitarbeitende auf kinder-kardiologischen Stationen vermittelt werden. Besonders vor, während und nach dem Krankenhausaufenthalt,

aber auch bei Bedarf, sollten Geschwister dann ausreichend Möglichkeiten erhalten, über ihre Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF mit psychosozialen Mitarbeitenden, ihren Eltern (Redshaw & Wilson, 2012; Schamong et al., 2022) und gleichaltrigen Betroffenen zu kommunizieren, um Empathie und Verständnis zu erleben (McKenzie Smith et al., 2018) und Anregungen zur Bewältigung des Belastungserlebens zu erhalten (Schamong et al., 2022 subm).

### **8.3.2 Unterstützungsmöglichkeiten im sozialen Umfeld und durch Selbsthilfevereine**

Die plötzliche, längerfristige Trennung von der primären Bezugsperson im Rahmen eines Krankenhausaufenthaltes des Kindes mit AHF, meistens von der Mutter, kann als Bindungsabbruch (Bowlby & Bowlby, 2012) und Verlust von Routine wahrgenommen werden (Schamong et al., 2022 subm). Eine dauerhafte Anwesenheit eines Elternteils zu Hause beim Geschwisterkind während des Krankenhausaufenthalts, sowie die regelmäßige Anwesenheit des andern Elternteils, der das Kind stationär begleitet, könnte dem gefühlten Verlust von Routine und Verlassen seins entgegenwirken sowie Stabilität und Gelegenheit zum Austausch bieten (Gramszlo et al., 2020; Vella Gera et al., 2021). Um dies zu realisieren, könnten sich die Eltern bei der Betreuung ihrer Kinder abwechseln und weitere enge Bezugspersonen, wie beispielsweise Großeltern in die stationäre Begleitung des Kindes mit AHF einbinden, um selbst häufiger zu Hause anwesend zu sein. Ehrenamtliche Familienhelfer könnten außerdem, wie am Beispiel der Kinderhospizdienste bei Familien palliativ erkrankter Kinder (Kinderhospizdienste, 2021), oder weiterer Projekte zu Unterstützung von Familien komplex erkrankter Kinder (Thomas et al., 2023) in die Betreuung der Familie und die stationäre Begleitung des Kindes mit AHF einbezogen werden, indem sie Zeit für Geschwisterkinder haben, sich mit den erkrankten Kindern beschäftigen und den Eltern somit Unterstützung und Entlastung bieten. Auch sollten Geschwister in der besonders herausfordernden Zeit eines Krankenhausaufenthaltes, aber auch prinzipiell, in ihren bereits erfolgreich angewendeten, in Beitrag II (Schamong et al., 2022) identifizierten, ‚natürlichen‘ Bewältigungsmechanismen bestärkt werden. Gemeinsame familiäre Aktivitäten wie Unternehmungen oder Ausflüge, aber auch Ablenkung jeglicher Art wie beispielsweise Lernen, Freunde treffen und Sport treiben, halfen den Geschwistern laut Beitrag II bei der Bewältigung des AHF (Schamong et al., 2022 subm) und könnten dadurch ihre LQ verbessern (Schamong et al., 2021; Schamong et al., 2022 subm), ihre Resilienz stärken (Werner, 2013) und dadurch wiederum das Risiko für spätere psychische Erkrankungen verringern (Kessler & Wang, 2008).

Eine weitere Arbeit zu Geschwistern krebskranker Kinder, deren schulische Leistungen sich infolge der Erkrankung ihrer Geschwister verschlechterten, zeigte Zusammenhänge zwischen sozialer Unterstützung durch Lehrende, Gleichaltrige und Eltern und verbessertem emotionalen, verhaltensbezogenen und akademischen „Funktionieren“ auf und schlussfolgerte darauf hin, dass eine enge Zusammenarbeit zwischen Familie und Schule das psychologische Wohlbefinden der Geschwister verbessern könnte (Alderfer & Hodges, 2010). An dieser Stelle könnten ältere schulische oder studentische Paten

hilfreich sein, längerfristige, tragfähige Beziehungen, Struktur und akademische Unterstützung zu bieten und so Risikofaktoren zu mindern, Eltern zu entlasten und die schulischen Leistungen der Geschwister zu verbessern (McDaniel & Besnoy, 2019).

Die ebenfalls in Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) identifizierten Sorgen hinsichtlich der Zukunft des Kindes mit AHF könnten durch Berichte von, oder Kontakt zu einem Erwachsenen mit AHF, der bei guter Gesundheit und sozial und beruflich eingebunden ist, reduziert werden. Dies könnte durch lokale Selbsthilfvereine vermittelt werden und ein ermutigendes Beispiel darstellen, indem es den Geschwistern eine positive Zukunftsperspektive für das Kind mit dem AHF eröffnet und dadurch sowohl ihre Ängste vor dem Fortschreiten der Erkrankung als auch vor dem sozialen Ausschluss des Kindes mit AHF reduziert (Schamong et al., 2022 subm).

### **8.3.3 Unterstützungsmöglichkeiten durch die Eltern**

Unter der in den vorherigen Abschnitten genannten Entlastung der Eltern, könnten diese wieder vermehrt Kraft schöpfen die Geschwister in ihren ,natürlichen‘ Bewältigungsmechanismen zu bestärken, indem sie diese bei gemeinsamen familiären Aktivitäten oder Freizeitaktivitäten wie Sport, Treffen mit Freunden und gleichaltrigen Betroffenen und bei schulischen Themen unterstützen, offen mit ihnen über die Erkrankung kommunizieren sie in die Planung zukünftiger Behandlungen miteinbeziehen. Abschließend sollte berücksichtigt werden, dass die Geschwisterbeziehung in erheblichem Maße die persönliche Entwicklung, künftige Beziehungen und das psychische Funktionieren beeinflusst (Moon et al., 2021). Daher sollte Eltern von Kindern mit AHF im Einklang mit elterlichen Äußerungen aus der Beitrag II (Schamong et al., 2022 subm) zur Vorbeugung von Geschwisterkonflikten auf eine möglichst faire und somit ,gleiche‘ Behandlung ihrer Kinder achten, bei der das Kind mit AHF dieselben Regeln befolgen muss wie seine gesunden Geschwister (Ahn und Lee, 2018).

## **8.4 Fazit und Ausblick**

Durch die vorliegende monografische Dissertation mit Teilpublikationen konnten bestehende Forschungslücken bezüglich zahlreicher Aspekte der LQ, Erfahrungen und Unterstützungsbedarf von Geschwistern von Kindern mit AHF geschlossen werden. So konnte im Rahmen eines systematischen Reviews erstmalig die Häufigkeit und Art der Beeinträchtigung des psychosozialen Wohlbefindens und der LQ bei Geschwistern von Kindern mit AHF ermittelt werden. Das psychosoziale Wohlbefinden und die LQ war bei bis zu einem Drittel der Geschwister eingeschränkt. Einer Studie mit kleinen Fallzahlen zufolge waren die negativen Auswirkungen der Erkrankung bei Geschwistern von Kindern mit AHF stärker und sie bewerteten ihre LQ niedriger als Geschwister von Kindern mit anderen chronischen Erkrankungen wie Krebs, Mukoviszidose oder Typ-1-Diabetes. Mit verringertem psychosozialem Wohlbefinden in Zusammenhang standen Faktoren wie höheres Alter, weibliches Geschlecht, ein niedriger sozioökonomischer Status, vorherige Fehlgeburten oder der Verlust eines Geschwisterkindes sowie die

Sichtbarkeit und Schwere der Erkrankung. Zudem konnten keine Interventionen identifiziert werden, die direkt auf die Verbesserung der Situation der Geschwister von Kindern mit AHF abzielt, jedoch ergaben Studien, die Geschwister von Kindern mit AHF zumindest berücksichtigten oder inkludierten, dass Geschwister von Gesprächsangeboten profitieren, bei denen es ihnen ermöglicht wird, aus ihrer Perspektive über ihre Gefühle und Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF zu sprechen und ihre Eltern ihnen erklärten, wie genau die AHF-Behandlungen ablaufen. Die Ergebnisse einer darauf basierenden Online-Querschnittstudie mit einer größeren Stichprobe von Geschwistern von Kindern mit hauptsächlich moderaten und komplexen AHF zeigten, dass sowohl die Gesamt-HRQoL als auch die HRQoL in allen getesteten Domänen wie körperlichem Wohlbefinden, psychologischem Wohlbefinden, Autonomie und Eltern, soziale Unterstützung und Gleichaltrige sowie schulischem Umfeld bei Geschwistern von Kindern mit moderaten und komplexen AHF signifikant niedriger ist als bei Geschwistern von Kindern mit Typ-1-Diabetes, sowie unterdurchschnittlich gering im Vergleich zur Referenzpopulation europäischer Jugendlicher von 12 bis 18 Jahren. Am stärksten eingeschränkt war unter den getesteten HRQoL-Domänen das psychologische Wohlbefinden der Geschwister. Als Prädiktoren einer verringerten Gesamt-HRQoL wurden weibliches Geschlecht und Sichtbarkeit der Erkrankung ermittelt. Zur Ermittlung bisher unerforschter krankheitsspezifischer Erfahrungen und Unterstützungsbedarfe der Geschwister wurden dann Rahmen einer Interviewstudie Geschwister und Eltern befragt. Aus den genannten negativen Erfahrungen im Zusammenhang mit dem AHF ergab sich ein krankheitsspezifisches Profil an Sorgen wie der dauerhaften Angst vor der Verschlechterung des Gesundheitszustands bis hin zum Tod des Kindes mit AHF, der Angst vor wiederkehrenden Krankenhausaufenthalten und Belastungen wie eingeschränkten Familienaktivitäten, reduzierter elterliche Aufmerksamkeit und Unterstützung, und als stressig erlebte langwierige gemeinsame Mahlzeiten. Diese, besonders für moderate und komplexe AHF spezifische Kombination an Sorgen und Belastungen, lieferte zugleich mögliche Erklärungsansätze für die Beeinträchtigungen der untersuchten Aspekte der LQ der betroffenen Geschwister. Zu den erstmalig erforschten positiven Erfahrungen im Zusammenhang mit AHF gehörten ein starker Familienzusammenhalt und eine starke Bindung zu und Wertschätzung des Kindes mit AHF sowie Empathie für Menschen mit chronischen Erkrankungen im Allgemeinen, Wertschätzung der eigenen Gesundheit und persönliche Reifung, vielfältige eigene Stärken und Ressourcen und die Fähigkeit, im Hier und Jetzt zu leben. Erfolgreich angewandte Bewältigungsmechanismen waren beispielsweise Gespräche mit Freunden und Verwandten über die Häufigkeit sowie die erfolgreiche Behandlung von AHF, Nutzung von Ablenkungsmöglichkeiten wie Unterhaltung oder Lernen, Familienaktivitäten, Verständnis von anderen Betroffenen, eine altersentsprechende Entwicklung des Kindes mit AHF, das dieselben Regeln befolgen muss wie seine Geschwister, Religion, Entlastung der Geschwister von übermäßigen häuslichen Pflichten und Einbezug der Geschwister in die Planung künftiger AHF-Behandlungen. Die Geschwister zeigten außerdem großes Interesse an einer künftigen

Intervention, die Empathie und Unterstützung von gleichaltrigen Betroffenen sowie die Vermittlung medizinischer Informationen über AHF vereint.

Trotz des substanziellen Beitrags der vorliegenden monografischen Dissertation mit Teilpublikationen zum Forschungsstand bleiben weitere Fragen offen. So stehen die signifikanten Einschränkungen der LQ, insbesondere im psychologischen Wohlbefinden, und die Sorgen und Belastungen vieler Geschwister von Kindern mit AHF im starken Kontrast zu den bisher nur punktuell bestehenden Unterstützungsangeboten. Daraus ergibt sich dringender Handlungsbedarf, Maßnahmen zu entwickeln, um die LQ und primär das psychologische Wohlbefinden dieser Gruppe zu verbessern. Sorgen und Belastungen, positive Konsequenzen der Erkrankung und Bewältigungsmechanismen der Geschwister sowie ihr Unterstützungsbedarf sollten an einer großen Gruppe von abgefragt werden, um daraus Elemente einer krankheitsspezifischen Intervention zu entwickeln, die den Bedürfnissen des größtmöglichen Anteils der Geschwister entsprechen. Ein besonderer Fokus sollte hierbei auf der tiefergehenden Erforschung der positiven Konsequenzen der Erkrankung und der bereits erfolgreich angewendeten Bewältigungsmechanismen im Sinne von Ressourcen bzw. Schutzfaktoren liegen. Darüber hinaus sollten weitere mögliche Risikofaktoren für eine geringere Gesamt-LQ wie ein höheres Alter der Geschwister, eine höhere Position in der Geschwisterreihenfolge, eine höhere Komplexität der AHF, sowie vorherige Fehlgeburten oder Geschwisterverlust und ein niedriger sozioökonomischer Status der Familie an Stichproben untersucht werden, die auch Geschwister von Kindern mit simplen AHF miteinschließen, da für diese Gruppe bisher kaum Erkenntnisse vorliegen.

Auch sollten die im Rahmen dieser Arbeit gewonnenen Ergebnisse in der Interventionsentwicklung berücksichtigt werden, indem bereits bestehende, erfolgreich evaluierte Unterstützungsangebote wie der „ModuS-Geschwisterworkshop“ durch die in Beitrag II identifizierten AHF-spezifischen Themen und bereits erfolgreich angewandte Bewältigungsmechanismen der Geschwister ergänzt werden. Mitarbeitende im Bereich der pädiatrischen Kardiologie sowie Selbsthilfvereinen könnten zudem die Erkenntnisse der vorliegenden Arbeit direkt in eine ressourcenorientierte und ressourcenaktivierende Beratung und Unterstützung von Geschwistern von Kindern mit AHF und der Vielzahl von belasteten Eltern übernehmen. Hierbei sollten speziell weibliche Geschwister und die Geschwister von Kindern mit sichtbaren AHF berücksichtigt werden, da sie ein erhöhtes Risiko für Beeinträchtigungen der LQ haben. Da die Eltern, die Behandelnden des Kindes mit dem AHF und die Selbsthilfvereine die Dreh- und Angelpunkte der Bewältigung der Erkrankung durch die Geschwister darstellen, liegt hier aktuell das größte Potenzial für die Verbesserung der LQ der Geschwister. Daher sollten die belasteten Eltern sowohl bei Krankenhausaufenthalten, als auch im herausfordernden Alltag, beispielsweise durch Verwandte, ehrenamtliche Familienhelfer oder Schulpaten entlastet werden, damit sie wieder mehr Zeit und Energie für die gesunden Geschwister aufbringen können. Auch sollten die Eltern sowie die Geschwister regelmäßige, präventive und ressourcenaktivierende Gesprächsangebote durch psychosoziale Mitarbeitende im klinischen und ambulanten Bereich erhalten und von diesen ermutigt

werden, bereits bestehende Unterstützungsangebote von Selbsthilfevereinen in Anspruch zu nehmen. Schließlich sollten die oben genannten Erkenntnisse auch von Kostenträgern im Gesundheitswesen, im Sinne einer präventiven Unterstützung der Geschwister von Kindern mit AHF und ihrer Familien adaptiert werden, um bereits punktuell bestehende Angebote aufzustocken und flächendeckend auszubauen.



## 9 Literaturverzeichnis

- Abdulla, R.-i., Blew, G., & Holterman, M. (2004). Cardiovascular embryology. *Pediatric Cardiology*, *25*, 191-200.
- Abdurrahman, L. (2023). Adult congenital heart disease update. *Current Problems in Pediatric and Adolescent Health Care*, 101399.
- Adilbekova, A., Marasulov, S., Nurkeyev, B., & Kozhakhmetov, S. (2022). Evolution of surgery of ventricular septal defect closure. *Journal of Clinical Medicine of Kazakhstan*, *19*(5), 4-8.
- Ahn, J.-A., & Lee, S. (2018). The adaptation process of mothers raising a child with complex congenital heart disease. *Journal of Child Health Care*, *22*(4), 520-531.
- Alderfer, M. A., & Hodges, J. A. (2010). Supporting siblings of children with cancer: A need for family–school partnerships. *School mental health*, *2*, 72-81.
- Alderfer, M. A., Long, K. A., Lown, E. A., Marsland, A. L., Ostrowski, N. L., Hock, J. M., & Ewing, L. J. (2010). Psychosocial adjustment of siblings of children with cancer: a systematic review. *Psycho-oncology*, *19*(8), 789-805.
- Alwi, M. (2008). Stenting the ductus arteriosus: case selection, technique and possible complications. *Annals of Pediatric Cardiology*, *1*(1), 38.
- Amedro, P., Dorka, R., Moniotte, S., Guillaumont, S., Fraise, A., Kreitmann, B., Borm, B., Bertet, H., Barréa, C., & Ovaert, C. (2015). Quality of life of children with congenital heart diseases: a multicenter controlled cross-sectional study. *Pediatric Cardiology*, *36*, 1588–1601.
- Anderson, R. H., & Jacobs, M. L. (2008). The anatomy of tetralogy of Fallot with pulmonary stenosis. *Cardiology in the Young*, *18*(S3), 12-21.
- André, Q. (2022). Outlier exclusion procedures must be blind to the researcher's hypothesis. *Journal of Experimental Psychology: General*, *151*(1), 213.
- Apley, J., Barbour, R., & Westmacott, I. (1967). Impact of congenital heart disease on the family: preliminary report. *British Medical Journal*, *1*(5532), 103.
- Ardianti, V. N., Frety, E. E., & Setyowati, D. (2023). Quality of life in children with congenital heart disease (CHD): Systematic review. *World Journal of Advanced Research and Reviews*, *17*(1), 425-432.
- Arnold, C. K., Heller, T., & Kramer, J. (2012). Support needs of siblings of people with developmental disabilities. *Intellectual and developmental disabilities*, *50*(5), 373-382.
- Arrington-Sanders, R., Yi, M. S., Tsevat, J., Wilmott, R. W., Mrus, J. M., & Britto, M. T. (2006). Gender differences in health-related quality of life of adolescents with cystic fibrosis. *Health and Quality of Life Outcomes*, *4*, 1-8.
- Attar, H., Sachdeva, A., & Sundararajan, S. (2016). Cardioembolic stroke in adults with a history of congenital heart disease. *Stroke*, *47*(5), e79-e81.

- Axt-Fliedner, R., Kreiselmaier, P., Schwarze, A., Krapp, M., & Gembruch, U. (2006). Development of hypoplastic left heart syndrome after diagnosis of aortic stenosis in the first trimester by early echocardiography. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology: The Official Journal of the International Society of Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*, 28(1), 106-109.
- Aydemir, N. A., Harmandar, B., Karaci, A. R., Sasmazel, A., Bolukcu, A., Saritas, T., Yucel, I. K., Coskun, F. I., Bilal, M. S., & Yekeler, I. (2013). Results for surgical closure of isolated ventricular septal defects in patients under one year of age. *Journal of Cardiac Surgery: Including Mechanical and Biological Support for the Heart and Lungs*, 28(2), 174-179.
- Azhar, A. S., AlShammasi, Z. H., & Higgi, R. E. (2016). The impact of congenital heart diseases on the quality of life of patients and their families in Saudi Arabia: Biological, psychological, and social dimensions. *Saudi medical journal*, 37(4), 392.
- Bagai, S., & Erratt, C. (2019). Fighting the Bullying Epidemic: A Practitioner Inquiry into the Effects of an Intervention Strategy on Reaction to Bullying in School-Aged Children with Speech Disabilities. *Creative Education*, 10(01), 26.
- Bailliard, F., & Anderson, R. H. (2009). Tetralogy of fallot. *Orphanet journal of rare diseases*, 4, 1-10.
- Bakhtiary, F., Dähnert, I., Leontyev, S., Schröter, T., Hamsch, J., Mohr, F. W., & Kostelka, M. (2013). Outcome and incidence of re-intervention after surgical repair of tetralogy of fallot. *Journal of Cardiac Surgery: Including Mechanical and Biological Support for the Heart and Lungs*, 28(1), 59-63.
- Ballard, K. L. (2004). Meeting the needs of siblings of children with cancer. *Pediatric nursing*, 30(5), 394.
- Barkhuizen, M., Abella, R., Vles, J. H., Zimmermann, L. J., Gazzolo, D., & Gavilanes, A. W. (2021). Antenatal and perioperative mechanisms of global neurological injury in congenital heart disease. *Pediatric Cardiology*, 42(1), 1-18.
- Barlow, J. H., & Ellard, D. R. (2006). The psychosocial well-being of children with chronic disease, their parents and siblings: An overview of the research evidence base. *Child: care, health and development*, 32(1), 19-31.
- Bauer, U., & Lange, P. E. (2005). Angeborene Herzfehler. *Kompetenznetz Angeborene Herzfehler, Berlin*.
- Baumgartner, H., De Backer, J., Babu-Narayan, S. V., Budts, W., Chessa, M., Diller, G.-P., Lung, B., Klain, J., Lang, I. M., & Meijboom, F. (2021). 2020 ESC Guidelines for the management of adult congenital heart disease: the Task Force for the management of adult congenital heart disease of the European Society of Cardiology (ESC). Endorsed by: Association for European Paediatric and Congenital Cardiology (AEPC), International Society for Adult Congenital Heart Disease (ISACHD). *European heart journal*, 42(6), 563-645.

- Beghetti, M., & Galiè, N. (2009). Eisenmenger syndrome: a clinical perspective in a new therapeutic era of pulmonary arterial hypertension. *Journal of the American College of Cardiology*, *53*(9), 733-740.
- Bellin, M. H., & Kovacs, P. J. (2006). Fostering resilience in siblings of youths with a chronic health condition: A review of the literature. *Health & Social Work*, *31*(3), 209-216.
- Bentham, J. R., Zava, N. K., Harrison, W. J., Shauq, A., Kalantre, A., Derrick, G., Chen, R. H., Dhillon, R., Taliotis, D., & Kang, S.-L. (2018). Duct stenting versus modified Blalock-Taussig shunt in neonates with duct-dependent pulmonary blood flow: associations with clinical outcomes in a multicenter national study. *Circulation*, *137*(6), 581-588.
- Berger, R., & Weiss, T. (2009). The posttraumatic growth model: An expansion to the family system. *Traumatology*, *15*(1), 63-74.
- Bernier, P.-L., Stefanescu, A., Samoukovic, G., & Tchervenkov, C. I. (2010). The challenge of congenital heart disease worldwide: epidemiologic and demographic facts. *Seminars in Thoracic and Cardiovascular Surgery: Pediatric Cardiac Surgery Annual*,
- Bhatt, A. B., Foster, E., Kuehl, K., Alpert, J., Brabeck, S., Crumb, S., Davidson Jr, W. R., Earing, M. G., Ghoshhajra, B. B., & Karamlou, T. (2015). Congenital heart disease in the older adult: a scientific statement from the American Heart Association. *Circulation*, *131*(21), 1884–1931.
- Biber, S., Andonian, C., Beckmann, J., Ewert, P., Freilinger, S., Nagdyman, N., Kaemmerer, H., Oberhoffer, R., Pieper, L., & Neidenbach, R. C. (2019). Current research status on the psychological situation of parents of children with congenital heart disease. *Cardiovascular diagnosis and therapy*, *9*(Suppl 2), S369.
- Bichard, E., McKeever, S., Bench, S., & Wray, J. (2022). Experiences of siblings of children with congenital heart disease during Coronavirus disease 2019; A qualitative interview study. *Journal of Pediatric Nursing*, *63*, 96-101.
- Blue, G. M., Kirk, E. P., Sholler, G. F., Harvey, R. P., & Winlaw, D. S. (2012). Congenital heart disease: current knowledge about causes and inheritance. *The Medical Journal of Australia*, *197*(3), 155-159.
- Blum, U., Meyer, H., Beerbaum, P., Blum, U., Meyer, H., & Beerbaum, P. (2016). Fallot-Tetralogie: Tetralogy of Fallot, TOF. *Kompandium angeborene Herzfehler bei Kindern: Diagnose und Behandlung*, 129-139.
- Bourke, B. (2014). Positionality: Reflecting on the research process. *The qualitative report*, *19*(33), 1-9.
- Bowlby, J., & Bowlby, R. (2012). *The making and breaking of affectional bonds*. Routledge.
- Brennan, C., Hugh-Jones, S., & Aldridge, J. (2013). Paediatric life-limiting conditions: Coping and adjustment in siblings. *Journal of health psychology*, *18*(6), 813-824.

- Buckberg, G. D., Nanda, N. C., Nguyen, C., & Kocica, M. J. (2018). What is the heart? Anatomy, function, pathophysiology, and misconceptions. *Journal of cardiovascular development and disease*, 5(2), 33.
- Buczinski, S., Fecteau, G., & DiFruscia, R. (2006). Ventricular septal defects in cattle: A retrospective study of 25 cases. *The Canadian Veterinary Journal*, 47(3), 246.
- Burton, L. (2022). *The family life of sick children: A study of families coping with chronic childhood disease* (Vol. 8). Routledge.
- Cahill, T., Jewell, P., Denne, L., Franklin, R., Frigiola, A., Orchard, E., & Prendergast, B. (2019). Contemporary epidemiology of infective endocarditis in patients with congenital heart disease: a UK prospective study. *American heart journal*, 215, 70-77.
- Cai, T., Verze, P., & Bjerklund Johansen, T. E. (2021). The quality of life definition: Where are we going? *Uro*, 1(1), 14-22.
- Caputo, C., Wood, E., & Jabbour, L. (2016). Impact of fetal alcohol exposure on body systems: a systematic review. *Birth Defects Research Part C: Embryo Today: Reviews*, 108(2), 174-180.
- Caris, E. C., Dempster, N., Wernovsky, G., Miao, Y., Moore-Clingenpeel, M., Neely, T., Fonseca, R., Miller-Tate, H., Allen, R., & Fichtner, S. (2018). Perception scores of siblings and parents of children with hypoplastic left heart syndrome. *Congenital heart disease*, 13(4), 528-532.
- Carminati, M., Butera, G., Chessa, M., De Giovanni, J., Fisher, G., Gewillig, M., Peuster, M., Piechaud, J. F., Santoro, G., & Sievert, H. (2007). Transcatheter closure of congenital ventricular septal defects: results of the European Registry. *European heart journal*, 28(19), 2361–2368.
- Casey, F. (2016). Congenital heart disease: the evolution of diagnosis, treatments, and outcomes. In *Congenital Heart Disease and Neurodevelopment* (pp. 3-13). Elsevier.
- Chakumatha, E., Weijers, J., Banda, K., Bailey, S., Molyneux, E., Chagaluka, G., & Israels, T. (2020). Outcome at the end of treatment of patients with common and curable childhood cancer types in Blantyre, Malawi. *Pediatric Blood & Cancer*, 67(7), e28322.
- Christ, J. (2022). *Basics Kardiologie*. Elsevier Health Sciences.
- Clancy, T., Jordan, B., de Weerth, C., & Muscara, F. (2020). Early emotional, behavioural and social development of infants and young children with congenital heart disease: a systematic review. *Journal of Clinical Psychology in Medical Settings*, 27, 686-703.
- Clarizia, N. A., Chahal, N., Manlhiot, C., Kilburn, J., Redington, A. N., & McCrindle, B. W. (2009). Transition to adult health care for adolescents and young adults with congenital heart disease: perspectives of the patient, parent and health care provider. *Canadian Journal of Cardiology*, 25(9), S317-S322.
- Clemente, C., Barnes, J., Shinebourne, E., & Stein, A. (2001). Are infant behavioural feeding difficulties associated with congenital heart disease? *Child: care, health and development*, 27(1), 47-59.
- Cohen, J. (1988). *Statistical power analysis*.

- Cohen, J. (2016). A power primer.
- Condon, B. B. (2010). The lived experience of feeling misunderstood. *Nursing Science Quarterly*, 23(2), 138-147.
- Connor, J. A., Gauvreau, K., & Jenkins, K. J. (2005). Factors associated with increased resource utilization for congenital heart disease. *Pediatrics*, 116(3), 689-695.
- Connor, J. A., Kline, N. E., Mott, S., Harris, S. K., & Jenkins, K. J. (2010). The meaning of cost for families of children with congenital heart disease. *Journal of Pediatric Health Care*, 24(5), 318-325.
- Correia Martins, L., Lourenço, R., Cordeiro, S., Carvalho, N., Mendes, I., Loureiro, M., Patrício, M., & Anjos, R. (2016). Catch-up growth in term and preterm infants after surgical closure of ventricular septal defect in the first year of life. *European journal of pediatrics*, 175, 573-579.
- da Silva, T. H., Pinho, J. R. R., da Silva Junior, T. J., & Carmona, F. (2019). Epidemiology of viral respiratory infections in children undergoing heart surgery. *Progress in Pediatric Cardiology*, 52, 22-25.
- Dabal, R. J., Kirklin, J. K., Kukreja, M., Brown, R. N., Cleveland, D. C., Eddins, M. C., & Lau, Y. (2014). The modern Fontan operation shows no increase in mortality out to 20 years: a new paradigm. *The Journal of thoracic and cardiovascular surgery*, 148(6), 2517–2524. e2511.
- Dakkak, W., & Oliver, T. I. (2017). Ventricular septal defect.
- Dalir, Z., Manzari, Z.-S., Kareshki, H., & Heydari, A. (2021). Caregiving strategies in families of children with congenital heart disease: A qualitative study. *Iranian journal of nursing and midwifery research*, 26(1), 60.
- Davies, S. J., DiNardo, J. A., Emani, S. M., & Brown, M. L. (2023). A review of biventricular repair for the congenital cardiac anesthesiologist. *Seminars in Cardiothoracic and Vascular Anesthesia*,
- Davison, A., & Hinkley, D. (2013). *Bootstrap Methods and their Application*. In: Cambridge University Press.
- de Man, M. A., Segers, E. W., Schappin, R., van der Leeden, K., Wösten-van Asperen, R. M., Breur, H., de Weerth, C., & van den Hoogen, A. (2021). Parental experiences of their infant's hospital admission undergoing cardiac surgery: a systematic review. *Acta Paediatrica*, 110(6), 1730–1740.
- Delgado-Corcoran, C., Witte, M. K., Ampofo, K., Castillo, R., Bodily, S., & Bratton, S. L. (2014). The impact of human rhinovirus infection in pediatric patients undergoing heart surgery. *Pediatric Cardiology*, 35, 1387–1394.
- Denniss, D. L., Sholler, G. F., Costa, D. S., Winlaw, D. S., & Kasparian, N. A. (2019). Need for routine screening of health-related quality of life in families of young children with complex congenital heart disease. *The Journal of pediatrics*, 205, 21-28. e22.

- Deutsche Gesellschaft für Pädiatrische Kardiologie und Angeborene Herzfehler e.V. (DGPK) (2022). *S2k-Leitlinie Hypoplastisches Linksherzsyndrom/Hypoplastischer Linksherzkomplex im Kindes- und Jugendalter im Kindes- und Jugendalter*. [https://register.awmf.org/assets/guidelines/023-030I\\_S2k\\_Hypoplastisches-Linksherzsyndrom-Hypoplastischer-Linksherzkomplex-Kinder-Jugendliche\\_2023-01.pdf](https://register.awmf.org/assets/guidelines/023-030I_S2k_Hypoplastisches-Linksherzsyndrom-Hypoplastischer-Linksherzkomplex-Kinder-Jugendliche_2023-01.pdf)
- Diller, G.-P., Dimopoulos, K., Broberg, C. S., Kaya, M. G., Naghotra, U. S., Uebing, A., Harries, C., Goktekin, O., Gibbs, J. S. R., & Gatzoulis, M. A. (2006). Presentation, survival prospects, and predictors of death in Eisenmenger syndrome: a combined retrospective and case–control study. *European heart journal*, *27*(14), 1737–1742.
- DiMeglio, L. A., Evans-Molina, C., & Oram, R. A. (2018). Type 1 diabetes. *The Lancet*, *391*(10138), 2449–2462.
- Dipchand, A. I., Honjo, O., Alonso-Gonzalez, R., McDonald, M., & Roche, S. L. (2022). Heart transplant indications, considerations, and outcomes in Fontan patients: age-related nuances, transplant listing, and disease-specific indications. *Canadian Journal of Cardiology*, *38*(7), 1072–1085.
- Dolk, H., Loane, M., & Garne, E. (2010). The prevalence of congenital anomalies in Europe. *Rare diseases epidemiology*, 349-364.
- Downes, M. J., Brennan, M. L., Williams, H. C., & Dean, R. S. (2016). Development of a critical appraisal tool to assess the quality of cross-sectional studies (AXIS). *BMJ open*, *6*(12), e011458.
- Engelhardt-Lohrke, C., Schepper, F., Herrmann, J., Kowalewski, K., Spilger, T., Weiß, C., & Martini, J. (2020). Evaluation eines manualisierten Gruppenprogramms für Geschwister von erkrankten oder behinderten Kindern. *Praxis der Kinderpsychologie und Kinderpsychiatrie*, *69*(3), 203-217.
- El-Sisi, A. M., Menaissy, Y. M., & Bekheet, S. A. (2016). Infective endocarditis following coil occlusion of perimembranous ventricular septal defect with the Nit-Occlud (®) Le device. *Annals of Pediatric Cardiology*, *9*(1), 59.
- Ellert, U., Brettschneider, A.-K., Ravens-Sieberer, U., & Group, K. S. (2014). Gesundheitsbezogene Lebensqualität bei Kindern und Jugendlichen in Deutschland. *Bundesgesundheitsblatt-Gesundheitsforschung-Gesundheitsschutz*, *57*(7), 798-806.
- Ernst, G., Klein, L., Kowalewski, K., & Szczepanski, R. (2020). Ich bin auch noch da–Schulung für Geschwister von chronisch kranken oder behinderten Kindern. *Klinische Pädiatrie*, *232*(06), 300-306.
- Ernst, M. M., Marino, B. S., Cassidy, A., Piazza-Waggoner, C., Franklin, R. C., Brown, K., & Wray, J. (2018). Biopsychosocial predictors of quality of life outcomes in pediatric congenital heart disease. *Pediatric Cardiology*, *39*, 79-88.
- Ernst, G., & Szczepanski, R. (2017). Modulares Schulungsprogramm für chronisch kranke Kinder und Jugendliche sowie deren Familien „ModuS“.

- Ewert, P., & Eicken, A. (2020). Pulmonalklappeninsuffizienz bei EmaH–interventionelle Therapie. *Kardiologie up2date*, 16(01), 43-54.
- Fanous, E., & Mogyorósy, G. (2017). Does the prophylactic and therapeutic use of beta-blockers in preoperative patients with tetralogy of Fallot significantly prevent and treat the occurrence of cyanotic spells? *Interactive CardioVascular and Thoracic Surgery*, 25(4), 647-650.
- Faul, F., Erdfelder, E., Lang, A.-G., & Buchner, A. (2007). G\* Power 3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior research methods*, 39(2), 175-191.
- Feinstein, J. A., Benson, D. W., Dubin, A. M., Cohen, M. S., Maxey, D. M., Mahle, W. T., Pahl, E., Villafañe, J., Bhatt, A. B., & Peng, L. F. (2012). Hypoplastic left heart syndrome: current considerations and expectations. *Journal of the American College of Cardiology*, 59(1S), S1-S42.
- Feltez, G., Coronel, C. C., Pellanda, L. C., & Lukrafka, J. L. (2015). Exercise capacity in children and adolescents with corrected congenital heart disease. *Pediatric Cardiology*, 36(5), 1075–1082.
- Feriante, J., Shayani, A., Lauer, E., Pressman, A., & Rubin, E. (2022). Sibling Support Program: A Novel Peer Support Intervention for Parents, Caregivers and Siblings of Youth Experiencing Mental Illness. *Healthcare*,
- Fiore, A. E., Shay, D. K., Broder, K., Iskander, J. K., Uyeki, T. M., Mootrey, G., Bresee, J. S., & Cox, N. J. (2009). Prevention and control of seasonal influenza with vaccines: recommendations of the Advisory Committee on Immunization Practices (ACIP), 2009. *Morbidity and Mortality Weekly Report: Recommendations and Reports*, 58(8), 1-52.
- Freitas, I. R., Castro, M., Sarmiento, S. L., Moura, C., Viana, V., Areias, J. C., & Areias, M. E. G. (2013). A cohort study on psychosocial adjustment and psychopathology in adolescents and young adults with congenital heart disease. *BMJ open*, 3(1), e001138.
- Friedberg, M. K., Silverman, N. H., Moon-Grady, A. J., Tong, E., Nourse, J., Sorenson, B., Lee, J., & Hornberger, L. K. (2009). Prenatal detection of congenital heart disease. *The Journal of pediatrics*, 155(1), 26-31. e21.
- Furck, A. K., Uebing, A., Hansen, J. H., Scheewe, J., Jung, O., Fischer, G., Rickers, C., Holland-Letz, T., & Kramer, H.-H. (2010). Outcome of the Norwood operation in patients with hypoplastic left heart syndrome: a 12-year single-center survey. *The Journal of thoracic and cardiovascular surgery*, 139(2), 359-365.
- Gales, J., Krasuski, R. A., & Fleming, G. A. (2018). Transcatheter valve replacement for right-sided valve disease in congenital heart patients. *Progress in cardiovascular diseases*, 61(3-4), 347-359.
- Gan, L. L., Lum, A., Wakefield, C. E., Nandakumar, B., & Fardell, J. E. (2017). School experiences of siblings of children with chronic illness: a systematic literature review. *Journal of Pediatric Nursing*, 33, 23-32.

- Gaskin, K. L. (2018). Patterns of transition experience for parents going home from hospital with their infant after first stage surgery for complex congenital heart disease. *Journal of Pediatric Nursing*, *41*, e23-e32.
- Gittenberger-de Groot, A. C., Bartelings, M. M., Poelmann, R. E., Haak, M. C., & Jongbloed, M. R. (2013). Embryology of the heart and its impact on understanding fetal and neonatal heart disease. *Seminars in Fetal and Neonatal Medicine*,
- Goerges, R., Salputra, E., & Lubaua, I. (2016). Hypoplastic left heart syndrome: a review. *Acta medica Lituanica*, *23*(2), 86.
- Goldbeck, L., & Melches, J. (2005). Quality of life in families of children with congenital heart disease. *Quality of life research*, *14*, 1915–1924.
- Goldberg, J. F. (2015). Long-term Follow-up of “Simple” Lesions—Atrial Septal Defect, Ventricular Septal Defect, and Coarctation of the Aorta. *Congenital heart disease*, *10*(5), 466-474.
- Göpel, E., Stein, R., Gesing, J., Stoltze, A., Pfäffle, R., & Kiess, W. (2023). Wachstumsstörungen—zu klein, zu groß oder doch normal? *Kinder-und Jugendmedizin*, *23*(01), 9-18.
- Gramszlo, C., Karpyn, A., Christofferson, J., McWhorter, L. G., Demianczyk, A. C., Lihn, S. L., Tanem, J., Zybiewski, S., Boyle, E. L., & Kazak, A. E. (2020). Supporting parenting during infant hospitalisation for CHD. *Cardiology in the Young*, *30*(10), 1422–1428.
- Granbom, E., Fernlund, E., Sunnegårdh, J., Lundell, B., & Naumburg, E. (2016). Respiratory tract infection and risk of hospitalization in children with congenital heart defects during season and off-season: a Swedish national study. *Pediatric Cardiology*, *37*, 1098–1105.
- Gregory, M. R. B., Prouhet, P. M., Russell, C. L., & Pfannenstiel, B. R. (2018). Quality of life for parents of children with congenital heart defect: A systematic review. *Journal of Cardiovascular Nursing*, *33*(4), 363-371.
- Haerskjold, A., Kristensen, K., Kamper-Jørgensen, M., Andersen, A.-M. N., Ravn, H., & Stensballe, L. G. (2016). Risk factors for hospitalization for respiratory syncytial virus infection: a population-based cohort study of Danish children. *The Pediatric Infectious Disease Journal*, *35*(1), 61-65.
- Hager, A., Ovroutski, S., & Cesnjevar, R. (2013). AWMF-Register Nr. 023/039 Klasse: S2k.
- Hallion, M., Taylor, A., & Roberts, R. (2018). Complete mental health in adult siblings of those with a chronic illness or disability. *Disability and rehabilitation*, *40*(3), 296-301.
- Hammarberg, K., Kirkman, M., & de Lacey, S. (2016). Qualitative research methods: when to use them and how to judge them. *Human reproduction*, *31*(3), 498-501.
- Hanvey, I., Malovic, A., & Ntontis, E. (2022). Glass children: The lived experiences of siblings of people with a disability or chronic illness. *Journal of Community & Applied Social Psychology*, *32*(5), 936-948.



- Hartling, L., Milne, A., Tjosvold, L., Wrightson, D., Gallivan, J., & Newton, A. S. (2014). A systematic review of interventions to support siblings of children with chronic illness or disability. *Journal of paediatrics and child health, 50*(10), E26-E38.
- Havermans, T., Croock, I. D., Vercruyse, T., Goethals, E., & Diest, I. V. (2015). Belgian siblings of children with a chronic illness: Is their quality of life different from their peers? *Journal of Child Health Care, 19*(2), 154-166.
- Havers-Borgersen, E., Butt, J. H., Smerup, M., Gislason, G. H., Torp-Pedersen, C., Gröning, M., Schmidt, M. R., Søndergaard, L., Køber, L., & Fosbøl, E. L. (2021). Incidence of infective endocarditis among patients with Tetralogy of Fallot. *Journal of the American Heart Association, 10*(22), e022445.
- Havill, N., Fleming, L. K., & Knafel, K. (2019). Well siblings of children with chronic illness: A synthesis research study. *Research in nursing & health, 42*(5), 334-348.
- Healy, F., Hanna, B., & Zinman, R. (2012). Pulmonary complications of congenital heart disease. *Paediatric respiratory reviews, 13*(1), 10-15.
- Herberg, U. (2020). Fetal and neonatal Kreislauf. In *Pädiatrie: Grundlagen und Praxis* (pp. 1983–1986). Springer.
- Herrman, J. W. (2010). Siblings' perceptions of the costs and rewards of diabetes and its treatment. *Journal of Pediatric Nursing, 25*(5), 428-437.
- Heye, K. N., Knirsch, W., Scheer, I., Beck, I., Wetterling, K., Hahn, A., Hofmann, K., Latal, B., Reich, B., & Landolt, M. A. (2019). Health-related quality of life in pre-school age children with single-ventricle CHD. *Cardiology in the Young, 29*(2), 162-168.
- Holderman, J. C. (2017). Their New Normal: How We Can Help Siblings Thrive in the World of Pediatric Mortality. *Pathways: Stanford Journal of Public Health (SJPH), 6*, 51-57.
- Horner, T., Liberthson, R., & Jellinek, M. S. (2000). Psychosocial profile of adults with complex congenital heart disease. *Mayo Clinic Proceedings*,
- Hövels-Gürich, H., & Latal, B. (2021). Positionspapier: Forderung eines Umfassenden Neuropsychologischen Screenings für Kinder und Jugendliche mit angeborenem Herzfehler (AHF). *The Thoracic and Cardiovascular Surgeon, 69*(S 02), DGPK-eP22.
- Hövels-Gürich, H. H. (2016). Factors influencing neurodevelopment after cardiac surgery during infancy. *Frontiers in pediatrics, 4*, 137.
- Hsu, D. T. (2015). The Fontan operation: the long-term outlook. *Current Opinion in Pediatrics, 27*(5), 569-575.
- Ionescu-Ittu, R., Mackie, A. S., Abrahamowicz, M., Pilote, L., Tchervenkov, C., Martucci, G., & Marelli, A. J. (2010). Valvular operations in patients with congenital heart disease: increasing rates from 1988 to 2005. *The Annals of thoracic surgery, 90*(5), 1563–1569.
- Janus, M., & Goldberg, S. (1997). Treatment characteristics of congenital heart disease and behaviour problems of patients and healthy siblings. *Journal of paediatrics and child health, 33*(3), 219-225.

- Johns, M., Schmader, T., & Martens, A. (2005). Knowing is half the battle: Teaching stereotype threat as a means of improving women's math performance. *Psychological science*, 16(3), 175-179.
- Jones, P. R. (2019). A note on detecting statistical outliers in psychophysical data. *Attention, Perception, & Psychophysics*, 81, 1189–1196.
- Kanakis, M. A., Petropoulos, A. C., & Mitropoulos, F. A. (2009). Fontan operation. *Hellenic J Cardiol*, 50(2), 133-141.
- Kang, N., Cole, T., Tsang, V., Elliott, M., & de Leval, M. (2004). Risk stratification in paediatric open-heart surgery. *European journal of cardio-thoracic surgery*, 26(1), 3-11.
- Karimi, M., & Brazier, J. (2016). Health, health-related quality of life, and quality of life: what is the difference? *Pharmacoeconomics*, 34, 645-649.
- Karonis, T., Scognamiglio, G., Babu-Narayan, S. V., Montanaro, C., Uebing, A., Diller, G. P., Alonso-Gonzalez, R., Swan, L., Dimopoulos, K., & Gatzoulis, M. A. (2016). Clinical course and potential complications of small ventricular septal defects in adulthood: late development of left ventricular dysfunction justifies lifelong care. *International journal of cardiology*, 208, 102-106.
- Kaugars, A., Shields, C., & Brosig, C. (2018). Stress and quality of life among parents of children with congenital heart disease referred for psychological services. *Congenital heart disease*, 13(1), 72-78.
- Kendall, E., Maujean, A., Pepping, C. A., & Wright, J. J. (2014). Hypotheses about the psychological benefits of horses. *Explore*, 10(2), 81-87.
- Kessler, R. C., & Wang, P. S. (2008). The descriptive epidemiology of commonly occurring mental disorders in the United States. *Annual review of public health*, 29(1), 115-129.
- Kinderhospizdienste, A. (2021). FALLBERICHT 57.1 Ambulante Versorgungs-möglichkeiten bei (noch) fehlender Diagnose. *Fälle Palliativmedizin: Patientenzentrierte, multiprofessionelle Empfehlungen aus der Praxis*, 420.
- Kloesel, B., DiNardo, J. A., & Body, S. C. (2016). Cardiac embryology and molecular mechanisms of congenital heart disease—A primer for anesthesiologists. *Anesthesia and analgesia*, 123(3), 551.
- Knecht, C., Winkelheide, M., & Fiedler, M. (2022). Soziale Unterstützung für gesunde Geschwister—eine Frage der Perspektive. *JuKiP-Ihr Fachmagazin für Gesundheits-und Kinderkrankenpflege*, 11(04), 160-172.
- Kolaitis, G. A., Meentken, M. G., & Utens, E. M. (2017). Mental health problems in parents of children with congenital heart disease. *Frontiers in pediatrics*, 5, 102.
- Kowalewski, K., Spilger, T., Jagla, M., Podeswik, A., & Hampel, P. (2014). "Supporting Siblings" Evaluation of a life skills program for siblings of children with chronic health conditions and/or disabilities. *Prävention und Gesundheitsförderung*, 9, 312-320.
- Kuang, D., Lei, Y., Yang, L., & Wang, Y. (2020). Preclinical study of a self-expanding pulmonary valve for the treatment of pulmonary valve disease. *Regenerative Biomaterials*, 7(6), 609-618.

- Kurji, Z., Premani, Z. S., & Mithani, Y. (2016). Analysis of the health care system of Pakistan: lessons learnt and way forward. *J Ayub Med Coll Abbottabad*, 28(3), 601.
- Kushki, A., Drumm, E., Pla Mobarak, M., Tanel, N., Dupuis, A., Chau, T., & Anagnostou, E. (2013). Investigating the autonomic nervous system response to anxiety in children with autism spectrum disorders. *PLoS one*, 8(4), e59730.
- Kyavar, M., & Sadeghpour, A. (2014). Cyanosis. *Comprehensive Approach to Adult Congenital Heart Disease*, 37-43.
- La Clare, H. L. (2013). The impact of childhood chronic illness on the family: psychosocial adjustment of siblings.
- Lauser, A. (2008). Philippine women on the move: Marriage across borders. *International Migration*, 46(4), 85-110.
- Lavigne, J. V., & Ryan, M. (1979). Psychologic adjustment of siblings of children with chronic illness. *Pediatrics*, 63(4), 616-627.
- Lawal, H., Anyebe, E., Obiako, O., & Garba, S. (2014). Socio-economic challenges of parents of children with neurological disorders: A hospital-based study in northwest Nigeria. *International Journal of Nursing and Midwifery*, 6(4), 58-66.
- Lawoko, S., & Soares, J. J. (2002). Distress and hopelessness among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases, and parents of healthy children. *Journal of psychosomatic research*, 52(4), 193-208.
- Lawoko, S., & Soares, J. J. (2006). Psychosocial morbidity among parents of children with congenital heart disease: a prospective longitudinal study. *Heart & lung*, 35(5), 301-314.
- Li, H., Shi, Y., Zhang, S., Ren, Y., Rong, X., Wang, Z., Xia, T., Wu, T., Xu, H., & Yan, Y. (2019). Short-and medium-term follow-up of transcatheter closure of perimembranous ventricular septal defects. *BMC Cardiovascular Disorders*, 19, 1-10.
- Limongi, T., Brigo, L., Tirinato, L., Pagliari, F., Gandin, A., Contessotto, P., Giugni, A., & Brusatin, G. (2021). Three-dimensionally two-photon lithography realized vascular grafts. *Biomedical Materials*, 16(3), 035013.
- Lindinger, A., Schwedler, G., & Hense, H.-W. (2010). Prevalence of congenital heart defects in newborns in Germany: Results of the first registration year of the PAN Study (July 2006 to June 2007). *Klinische Pädiatrie*, 222(05), 321-326.
- Lindinger, A., Schwedler, G., & Hense, H.-W. (2011). Angeborene Herzfehler in Deutschland. *Der Kardiologe*, 5(5), 325-333.
- Lipscomb, J., Gotay, C. C., & Snyder, C. (2011). *Outcomes assessment in cancer: measures, methods and applications*. Cambridge University Press.

- Liu, Y., Chen, S., Zühlke, L., Black, G. C., Choy, M.-k., Li, N., & Keavney, B. D. (2019). Global birth prevalence of congenital heart defects 1970–2017: updated systematic review and meta-analysis of 260 studies. *International journal of epidemiology*, *48*(2), 455-463.
- Long, K. A., Marsland, A. L., Wright, A., & Hinds, P. (2015). Creating a tenuous balance: Siblings' experience of a brother's or sister's childhood cancer diagnosis. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, *32*(1), 21-31.
- Loomba, R. S., Rausa, J., Farias, J. S., Villarreal, E. G., Acosta, S., Savorgnan, F., & Flores, S. (2022). Impact of medical interventions and comorbidities on Norwood admission for patients with hypoplastic left heart syndrome. *Pediatric Cardiology*, *43*(2), 267-278.
- Magder, S. (2007). The left heart can only be as good as the right heart: determinants of function and dysfunction of the right ventricle. *Critical Care and Resuscitation*, *9*(4).
- Mahle, W. T., Hu, C., Trachtenberg, F., Menteer, J., Kindel, S. J., Dipchand, A. I., Richmond, M. E., Daly, K. P., Henderson, H. T., & Lin, K. Y. (2018). Heart failure after the Norwood procedure: An analysis of the Single Ventricle Reconstruction Trial. *The Journal of Heart and Lung Transplantation*, *37*(7), 879-885.
- Malcolm, C., Gibson, F., Adams, S., Anderson, G., & Forbat, L. (2014). A relational understanding of sibling experiences of children with rare life-limiting conditions: Findings from a qualitative study. *Journal of Child Health Care*, *18*(3), 230-240.
- Mandalenakis, Z., Giang, K. W., Eriksson, P., Liden, H., Synnergren, M., Wåhlander, H., Maria Fedchenko, M., Rosengren, A., & Dellborg, M. (2020). Survival in children with congenital heart disease: have we reached a peak at 97%?. *Journal of the American Heart Association*, *9*(22), e017704.
- Marelli, A. J., Ionescu-Ittu, R., Mackie, A. S., Guo, L., Dendukuri, N., & Kaouache, M. (2014). Lifetime prevalence of congenital heart disease in the general population from 2000 to 2010. *Circulation*, *130*(9), 749-756.
- Mariñez, M. G. Q., Chakkera, M., Ravi, N., Ramaraju, R., Vats, A., Nair, A. R., Bandhu, A. K., Koirala, D., Pallapothu, M. R., & Khan, S. (2022). The Other Sibling: A Systematic Review of the Mental Health Effects on a Healthy Sibling of a Child With a Chronic Disease. *Cureus*, *14*(9).
- Marshall, K. H., D'Udekem, Y., Sholler, G. F., Opotowsky, A. R., Costa, D. S., Sharpe, L., Celermajer, D. S., Winlaw, D. S., Newburger, J. W., & Kasparian, N. A. (2020). Health-related quality of life in children, adolescents, and adults with a Fontan circulation: a meta-analysis. *Journal of the American Heart Association*, *9*(6), e014172.
- Martin, M. H., Shahanavaz, S., Peng, L. F., Asnes, J. D., Riley, M., Hellenbrand, W. E., Balzer, D. T., Gray, R. G., & McElhinney, D. B. (2018). Percutaneous transcatheter pulmonary valve replacement in children weighing less than 20 kg. *Catheterization and Cardiovascular Interventions*, *91*(3), 485-494.

- März, S. (2021). Angeborene Herzfehler: Fötale Cardio-MRT-das Herz genau im Blick. *kma-Klinik Management aktuell*, 26(11), 56-59.
- Masnari, O., Neuhaus, K., Aegerter, T., Reynolds, S., Schiestl, C. M., & Landolt, M. A. (2019). Predictors of health-related quality of life and psychological adjustment in children and adolescents with congenital melanocytic nevi: analysis of parent reports. *Journal of pediatric psychology*, 44(6), 714-725.
- Mathew, P., & Bordoni, B. (2022). Embryology, heart. In *StatPearls [Internet]*. StatPearls Publishing.
- Matsuzaki, Y., Wiet, M. G., Boe, B. A., & Shinoka, T. (2021). The real need for regenerative medicine in the future of congenital heart disease treatment. *Biomedicines*, 9(5), 478.
- Mavroudis, C., Backer, C. L., & Anderson, R. H. (2023). Ventricular septal defect. *Pediatric cardiac surgery*, 317-360.
- Maya, S., Gunawijaya, E., Yantie, N. V. K., & Windiani, I. T. (2020). Growth, development, and quality of life in children with congenital heart disease children. *Open Access Macedonian Journal of Medical Sciences*, 8(B), 613-618.
- Mayring, P., & Fenzl, T. (2019). *Qualitative inhaltsanalyse*. Springer.
- McBride-Chang, C., & Chang, L. (1998). Adolescent-parent relations in Hong Kong: Parenting styles, emotional autonomy, and school achievement. *The Journal of Genetic Psychology*, 159(4), 421-436.
- McCarter-Spaulding, D. (2008). Is breastfeeding fair? Tensions in feminist perspectives on breastfeeding and the family. *Journal of Human Lactation*, 24(2), 206-212.
- McDaniel, S. C., & Besnoy, K. D. (2019). Cross-age peer mentoring for elementary students with behavioral and academic risk factors. *Preventing School Failure: Alternative Education for Children and Youth*, 63(3), 254-258.
- McKenzie Smith, M., Pinto Pereira, S., Chan, L., Rose, C., & Shafran, R. (2018). Impact of well-being interventions for siblings of children and young people with a chronic physical or mental health condition: a systematic review and meta-analysis. *Clinical Child and Family Psychology Review*, 21, 246-265.
- McQuillen, P. S., Barkovich, A. J., Hamrick, S. E., Perez, M., Ward, P., Glidden, D. V., Azakie, A., Karl, T., & Miller, S. P. (2007). Temporal and anatomic risk profile of brain injury with neonatal repair of congenital heart defects. *Stroke*, 38(2), 736-741.
- Medeiros, C., Gouveia, M. J., Canavarro, M. C., & Moreira, H. (2016). The indirect effect of the mindful parenting of mothers and fathers on the child's perceived well-being through the child's attachment to parents. *Mindfulness*, 7(4), 916-927.
- Menke, E. M. (1987). The impact of a child's chronic illness on school-aged siblings. *Children's Health Care*, 15(3), 132-140.

- Meza, J. M., Blackstone, E. H., Argo, M. B., Thuita, L., Lowry, A., Rajeswaran, J., Jegatheeswaran, A., Caldarone, C. A., Kirklin, J. K., & DeCamp, W. M. (2023). A dynamic Norwood mortality estimation: Characterizing individual, updated, predicted mortality trajectories after the Norwood operation. *JTCVS Open, 14*, 426-440.
- Mirani, B., Nejad, S. P., & Simmons, C. A. (2021). Recent progress toward clinical translation of tissue-engineered heart valves. *Canadian Journal of Cardiology, 37*(7), 1064–1077.
- Moher, D., Liberati, A., Tetzlaff, J., Altman, D. G., & Group, P. (2009). Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: the PRISMA statement. *Annals of internal medicine, 151*(4), 264-269.
- Moon, Y., Jung, J. W., & Lee, S. (2021). Sibling relationships of adolescents with congenital heart disease. *International Journal of Environmental Research and Public Health, 18*(5), 2698.
- Moser, A., & Korstjens, I. (2018). Series: Practical guidance to qualitative research. Part 3: Sampling, data collection and analysis. *European journal of general practice, 24*(1), 9-18.
- Mughal, A. R., Sadiq, M., Hyder, S. N., Qureshi, A. U., Shah, S. S. A., Khan, M. A., & Nasir, J. A. (2011). Socioeconomic status and impact of treatment on families of children with congenital heart disease. *J Coll Physicians Surg Pak, 21*(7), 398-402.
- Murray, C. J., Abbafati, C., Abbas, K. M., Abbasi, M., Abbasi-Kangevari, M., Abd-Allah, F., Abdollahi, M., Abedi, P., Abedi, A., Abolhassani, H., Aboyans, V., Guimaraes Abreu, L., Abrigo, M. R. M., Abu-Gharbieh, E., Khalid, A., Haimed, A., Abushouk, A. I., Acebedo, A., Ackerman, I. N., Adabi, M., Adamu, A. A., & Nagaraja, S. B. (2020). Five insights from the global burden of disease study 2019. *The Lancet, 396*(10258), 1135–1159.
- Nabors, L., Liddle, M., Graves, M. L., Kamphaus, A., & Elkins, J. (2019). A family affair: Supporting children with chronic illnesses. *Child: care, health and development, 45*(2), 227-233.
- Nagdyman, N., Huntgeburth, M., Hager, A., Neidenbach, R., Ewert, P., & Kaemmerer, H. (2016). Belastungen bei Erwachsenen mit angeborenen Herzfehlern (EMAH): Sport, Beruf, Familienplanung und Schwangerschaft. *Herzmedizin, 5*, 16-26.
- Naylor, A., & Prescott, P. (2004). Invisible children? The need for support groups for siblings of disabled children. *British Journal of Special Education, 31*(4), 199-206.
- Neidenbach, R., Nagdyman, N., Oberhoffer, R., & Kaemmerer, H. (2017). Angeborene Herzfehler im Langzeitverlauf. *Pädiatrie, 29*, 28-33.
- Newburger, J. W., Sleeper, L. A., Gaynor, J. W., Hollenbeck-Pringle, D., Frommelt, P. C., Li, J. S., Mahle, W. T., Williams, I. A., Atz, A. M., & Burns, K. M. (2018). Transplant-free survival and interventions at 6 years in the SVR trial. *Circulation, 137*(21), 2246–2253.
- Niggemeyer, E. (2016). Kompetenznetz Angeborene Herzfehler: Neue Forschungskonzepte für eine junge Patientengruppe. *Bundesgesundheitsblatt-Gesundheitsforschung-Gesundheitsschutz, 4*(59), 497-505.

- Niinomi, K., & Fukui, M. (2022). Children's psychosocial and behavioural consequences during their siblings' hospitalisation: A qualitative content analysis from caregivers' perspectives. *Journal of Clinical Nursing*, 31(15-16), 2219–2226.
- O'Brien, P., & Marshall, A. C. (2014). Tetralogy of fallot. *Circulation*, 130(4), e26-e29.
- Oerter, R., & Dreher, E. (2008). Jugendalter. Oerter, R., & Montada, L.: Entwicklungspsychologie. In: Weinheim: Beltz.
- Otto, C., & Ravens-Sieberer, U. (2020). Gesundheitsbezogene Lebensqualität. *BZGA–Federal Centre for Health Education*.
- Parker, R., Houghton, S., Bichard, E., & McKeever, S. (2020). Impact of congenital heart disease on siblings: A review. *Journal of Child Health Care*, 24(2), 297-316.
- Penny, D. J., & Vick, G. W. (2011). Ventricular septal defect. *The Lancet*, 377(9771), 1103–1112.
- Perry, D. G., & Pauletti, R. E. (2011). Gender and adolescent development. *Journal of research on adolescence*, 21(1), 61-74.
- Petrucci, O., O'Brien, S. M., Jacobs, M. L., Jacobs, J. P., Manning, P. B., & Eghtesady, P. (2011). Risk factors for mortality and morbidity after the neonatal Blalock-Taussig shunt procedure. *The Annals of thoracic surgery*, 92(2), 642-652.
- Pfitzer, C., Helm, P. C., Ferentzi, H., Rosenthal, L.-M., Bauer, U. M., Berger, F., & Schmitt, K. R. (2017). Changing prevalence of severe congenital heart disease: Results from the National Register for Congenital Heart Defects in Germany. *Congenital heart disease*, 12(6), 787-793.
- Piamjariyakul, U., Graff, J., Stanton, A., Guthrie, A., Hafeman, C., & Williams, A. (2010). Developmental disabilities: effects on well siblings. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing*, 33(1), 39-55.
- Pierpont, M. E., Brueckner, M., Chung, W. K., Garg, V., Lacro, R. V., McGuire, A. L., Mital, S., Priest, J. R., Pu, W. T., & Roberts, A. (2018). Genetic basis for congenital heart disease: revisited: a scientific statement from the American Heart Association. *Circulation*, 138(21), e653-e711.
- Pinto, C., & Fine-Goulden, M. (2022). Under a Spell. *Cases in Paediatric Critical Care Transfer and Retrieval Medicine*, 89.
- Rao, P. S. (2021). Single ventricle—A comprehensive review. *Children*, 8(6), 441.
- Rao, P. S., & Harris, A. D. (2018). Recent advances in managing septal defects: ventricular septal defects and atrioventricular septal defects. *F1000Research*, 7.
- Ravens-Sieberer, U., Herdman, M., Devine, J., Otto, C., Bullinger, M., Rose, M., & Klasen, F. (2014). The European KIDSCREEN approach to measure quality of life and well-being in children: development, current application, and future advances. *Quality of life research*, 23, 791-803.
- Ravindran, V. P., & Rempel, G. R. (2011). Grandparents and siblings of children with congenital heart disease. *Journal of advanced nursing*, 67(1), 169-175.
- RED Medical Systems GmbH. (2021) *RED connect – Videosprechstunde*. RED Medical Systems GmbH, München, Germany, 2021. <https://www.redmedical.de/red-connect-videosprechstunde/>

- Redshaw, S., & Wilson, V. (2012). Sibling involvement in childhood chronic heart disease through a bead program. *Journal of Child Health Care, 16*(1), 53-61.
- Ridgeway, C. L., & Correll, S. J. (2004). Motherhood as a status characteristic. *Journal of Social Issues, 60*(4), 683-700.
- Roberts, R. M., Ejova, A., Giallo, R., Strohm, K., Lillie, M., & Fuss, B. (2015). A controlled trial of the SibworkS group program for siblings of children with special needs. *Research in developmental disabilities, 43*, 21-31.
- Roberts, R. M., Ejova, A., Giallo, R., Strohm, K., & Lillie, M. E. (2016). Support group programme for siblings of children with special needs: predictors of improved emotional and behavioural functioning. *Disability and rehabilitation, 38*(21), 2063–2072.
- Rodriguez-Galindo, C., Friedrich, P., Alcasabas, P., Antillon, F., Banavali, S., Castillo, L., Israels, T., Jeha, S., Harif, M., & Sullivan, M. J. (2015). Toward the cure of all children with cancer through collaborative efforts: pediatric oncology as a global challenge. *Journal of Clinical Oncology, 33*(27), 3065.
- Saur, P., & Haller, C. (2019). Importance of the right ventricle in adults with congenital heart diseases: Special considerations for surgical and perioperative management. *Zeitschrift für Herz-, Thorax- und Gefäßchirurgie, 33*, 51-58.
- Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Pytel, V., Träuble, B., & Kalbe, E (2023 subm). *Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease*. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.
- Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Seven, Ü., & Kalbe, E (2022 subm). *A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease*. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.
- Schamong, A. S., Liebermann-Jordanidis, H., Brockmeier, K., Sticker, E., & Kalbe, E. (2021). Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review. *Journal of Child Health Care, 13674935211012933*.
- Schipper, M., Sliker, M. G., Schoof, P. H., & Breur, J. M. (2017). Surgical repair of ventricular septal defect; contemporary results and risk factors for a complicated course. *Pediatric Cardiology, 38*, 264-270.
- Schmaltz, A., & Bauer, U. (2013). Adults with congenital heart disease: treatment and medical problems. *Herz, 38*(6), 639-651; quiz 652.
- Schmaltz, A. A. (2014). Vielversprechende Langzeitergebnisse nach operativer Behandlung: Angeborene Herzfehler. *pädiatrie: Kinder-und Jugendmedizin hautnah, 26*, 316-322.



- Schwedler, G., Lindinger, A., Lange, P. E., Sax, U., Olchvary, J., Peters, B., Bauer, U., & Hense, H.-W. (2011). Frequency and spectrum of congenital heart defects among live births in Germany: a study of the Competence Network for Congenital Heart Defects. *Clinical Research in Cardiology*, *100*, 1111–1117.
- Scully, B. B., Morales, D. L., Zafar, F., McKenzie, E. D., Fraser Jr, C. D., & Heinle, J. S. (2010). Current expectations for surgical repair of isolated ventricular septal defects. *The Annals of thoracic surgery*, *89*(2), 544-551.
- Sendi, P., Hasse, B., Frank, M., Flückiger, U., Boggian, K., Guery, B., Jeger, R., Zbinden, S., Agyeman, P., & Knirsch, W. (2021). Infective endocarditis: prevention and antibiotic prophylaxis. *Swiss medical weekly*, *151*(0708), w20473-w20473.
- Sertçelik, T., Alkan, F., Sapmaz, Ş. Y., Coşkun, Ş., & Eser, E. (2018). Life quality of children with congenital heart diseases. *Turkish Archives of Pediatrics/Türk Pediatri Arşivi*, *53*(2), 78.
- Shah, A. S., McAllister, D. A., Gallacher, P., Astengo, F., Rodríguez Pérez, J. A., Hall, J., Ken Lee, K., Bing, R., Anand, A., & Nathwani, D. (2020). Incidence, microbiology, and outcomes in patients hospitalized with infective endocarditis. *Circulation*, *141*(25), 2067–2077.
- Sharma, V. J., Iyengar, A. J., Zannino, D., Gentles, T., Justo, R., Celermajer, D. S., Bullock, A., Winlaw, D., Wheaton, G., & Burchill, L. (2021). Protein-losing enteropathy and plastic bronchitis after the Fontan procedure. *The Journal of thoracic and cardiovascular surgery*, *161*(6), 2158–2165. e2154.
- Sharpe, D., & Rossiter, L. (2002). Siblings of children with a chronic illness: A meta-analysis. *Journal of pediatric psychology*, *27*(8), 699-710.
- Shen, Y., Cai, M.-H., Ji, W., Bai, J., Huang, Y., Sun, Y., Lin, L., Niu, J., & Zhang, M.-Z. (2016). Unrepaired tetralogy of fallot-related pathophysiologic changes reduce systemic clearance of etomidate in children. *Anesthesia & Analgesia*, *123*(3), 722-730.
- Shinoka, T., Shum-Tim, D., Ma, P. X., Tanel, R. E., Isogai, N., Langer, R., Vacanti, J. P., & Mayer Jr, J. E. (1998). Creation of viable pulmonary artery autografts through tissue engineering. *The Journal of thoracic and cardiovascular surgery*, *115*(3), 536-546.
- Simich, L., Beiser, M., & Mawani, F. N. (2003). Social support and the significance of shared experience in refugee migration and resettlement. *Western journal of nursing research*, *25*(7), 872-891.
- Sloper, P. (2000). Experiences and support needs of siblings of children with cancer. *Health & social care in the community*, *8*(5), 298-306.
- Sood, E., Karpyn, A., Demianczyk, A. C., Ryan, J., Delaplane, E. A., Neely, T., Frazier, A. H., & Kazak, A. E. (2018). Mothers and fathers experience stress of congenital heart disease differently: recommendations for pediatric critical care. *Pediatric critical care medicine: a journal of the Society of Critical Care Medicine and the World Federation of Pediatric Intensive and Critical Care Societies*, *19*(7), 626.

- SoSci Survey GmbH (2022). *SoSci Survey – die Lösung für eine professionelle Onlinebefragung* (2022). SoSci Survey GmbH. München, Germany. <https://www.soscisurvey.de/de/index>
- Soufflet, V., Van de Bruaene, A., Troost, E., Gewillig, M., Moons, P., Post, M. C., & Budts, W. (2010). Behavior of unrepaired perimembranous ventricular septal defect in young adults. *The American journal of cardiology*, *105*(3), 404-407.
- Spicer, D. E., Hsu, H. H., Co-Vu, J., Anderson, R. H., & Fricker, F. J. (2014). Ventricular septal defect. *Orphanet journal of rare diseases*, *9*(1), 1-16.
- Starr, J. P. (2010). Tetralogy of Fallot: yesterday and today. *World journal of surgery*, *34*, 658-668.
- Stone, E. (2010). T test, independent samples. *Encyclopedia of research design*, *3*, 402.
- Su, Z., Zhang, Y., Cai, X., Li, Q., Gu, H., Luan, Y., Yihua, H., Shoujun, L., Jimei, C., & Zhang, H. (2023). Improving long-term care and outcomes of congenital heart disease: fulfilling the promise of a healthy life. *The Lancet Child & Adolescent Health*.
- Su, Z., Zou, Z., Hay, S. I., Liu, Y., Li, S., Chen, H., Naghavi, M., Zimmerman, M. S., Martin, G. R., & Wilner, L. B. (2022). Global, regional, and national time trends in mortality for congenital heart disease, 1990–2019: An age-period-cohort analysis for the Global Burden of Disease 2019 study. *EClinicalMedicine*, *43*.
- Sun, R., Liu, M., Lu, L., Zheng, Y., & Zhang, P. (2015). Congenital heart disease: causes, diagnosis, symptoms, and treatments. *Cell biochemistry and biophysics*, *72*, 857-860.
- Thomas, R., Pesut, B., Siden, H., Treschow, M., & Puurveen, G. (2023). Developing competencies for volunteer navigators to support caregivers of children living with medical complexity: a mixed-method e-Delphi study. *Palliative Care and Social Practice*, *17*, 26323524231209060.
- Thompson, J. J. (2009). How chronic illness affects family relationships and the individual.
- Tong, A., Sainsbury, P., & Craig, J. (2007). Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): a 32-item checklist for interviews and focus groups. *International journal for quality in health care*, *19*(6), 349-357.
- Tönsfeuerborn, H., Krause, N., Teising, D., Jipp, H., Teising, D., & Tönsfeuerborn, H. (2021). Intensivpflege in der Kardiologie und Kardiochirurgie. *Neonatologische und pädiatrische Intensiv- und Anästhesiepflege*, 323-357.
- Tsang, K. L. V., Wong, P. Y., & Lo, S. K. (2012). Assessing psychosocial well-being of adolescents: A systematic review of measuring instruments. *Child: care, health and development*, *38*(5), 629-646.
- Tudor, M. E., & Lerner, M. D. (2015). Intervention and support for siblings of youth with developmental disabilities: A systematic review. *Clinical Child and Family Psychology Review*, *18*(1), 1-23.
- Tulloh, R. M., & Green, J. (2016). The anatomy of the normal heart. *The Science of Paediatrics: MRCPCH Mastercourse*, 341.

- Tutus, D., Niemitz, M., Fegert, J. M., & Wiegand-Grefe, S. (2023). Chronische somatische Erkrankungen mit psychischer Beteiligung in Kindheit und Jugendzeit. In *Psychiatrie und Psychotherapie des Kindes- und Jugendalters* (pp. 1-19). Springer.
- Üstün, N., Dilli, D., Zenciroglu, A., Okumus, N., Çınar, G., Özgür, S., & Koç, M. (2013). Long-term prostaglandin E1 use in newborns with duct-dependent congenital heart diseases: one year experience of a tertiary neonatal intensive care unit in Turkey/Duktus-bagimli konjenital kalp hastalıklı yenidoğanlarda uzun süreli prostaglandin E1 kullanımı: Türkiye'de üçüncü basamak bir yenidoğan yoğun bakım ünitesinin bir yıllık deneyimi. *The Anatolian Journal of Cardiology*, *13*(7), 732.
- Van de Ven, W. P., & Schut, F. T. (2008). Universal mandatory health insurance in the Netherlands: a model for the United States? *Health affairs*, *27*(3), 771-781.
- Van Der Bom, T., Zomer, A. C., Zwinderman, A. H., Meijboom, F. J., Bouma, B. J., & Mulder, B. J. (2011). The changing epidemiology of congenital heart disease. *Nature Reviews Cardiology*, *8*(1), 50-60.
- Van Der Linde, D., Konings, E. E., Slager, M. A., Witsenburg, M., Helbing, W. A., Takkenberg, J. J., & Roos-Hesselink, J. W. (2011). Birth prevalence of congenital heart disease worldwide: a systematic review and meta-analysis. *Journal of the American College of Cardiology*, *58*(21), 2241-2247.
- van der Mheen, M., Meentken, M. G., van Beynum, I. M., van der Ende, J., Van Galen, E., Zirar, A., Aendekerk, E. W., Van Den Adel, T. P., Bogers, A. J., & McCusker, C. G. (2019). CHIP-Family intervention to improve the psychosocial well-being of young children with congenital heart disease and their families: results of a randomised controlled trial. *Cardiology in the Young*, *29*(9), 1172-1182.
- van der Mheen, M., van Beynum, I. M., Dulfer, K., van der Ende, J., van Galen, E., Duvekot, J., Rots, L. E., van den Adel, T. P., Bogers, A. J., & McCusker, C. G. (2018). The CHIP-Family study to improve the psychosocial wellbeing of young children with congenital heart disease and their families: design of a randomized controlled trial. *BMC pediatrics*, *18*, 1-9.
- van der Ven, J. P., van den Bosch, E., Bogers, A. J., & Helbing, W. A. (2019). Current outcomes and treatment of tetralogy of Fallot. *F1000Research*, *8*.
- Vanisree, K., & Singaraju, J. (2011). Decision support system for congenital heart disease diagnosis based on signs and symptoms using neural networks. *International Journal of computer applications*, *19*(6), 6-12.
- Varni, J. W., Limbers, C. A., & Burwinkle, T. M. (2007). Impaired health-related quality of life in children and adolescents with chronic conditions: a comparative analysis of 10 disease clusters and 33 disease categories/severities utilizing the PedsQL™ 4.0 Generic Core Scales. *Health and Quality of Life Outcomes*, *5*, 1-15.
- Vella Gera, J., Martin, G. M., & Camilleri Zahra, A. J. (2021). An insight into the lives of young siblings of disabled children in Malta. *Disability & Society*, *36*(1), 58-80.

- VERBI GmbH (2020). *Qualitative Datenanalyse mit MAXQDA; Software für Windows & macOS* (2020), [MAXQDA] VERBI GmbH. <https://www.maxqda.com/de/>
- Veritas Health Innovation (2016). *Covidence Systematic Review Software*, Veritas Health Innovation. <https://www.covidence.org/>
- Vermaes, I. P., van Susante, A. M., & van Bakel, H. J. (2012). Psychological functioning of siblings in families of children with chronic health conditions: A meta-analysis. *Journal of pediatric psychology, 37*(2), 166-184.
- Vogel, M., Wilkins-Haug, L. E., McElhinney, D. B., Marshall, A. C., Benson, C. B., Silva, V., & Tworetzky, W. (2010). Reversible ductus arteriosus constriction due to maternal indomethacin after fetal intervention for hypoplastic left heart syndrome with intact/restrictive atrial septum. *Fetal diagnosis and therapy, 27*(1), 40-45.
- Von Elm, E., Altman, D. G., Egger, M., Pocock, S. J., Gøtzsche, P. C., & Vandenbroucke, J. P. (2007). The Strengthening the Reporting of Observational Studies in Epidemiology (STROBE) statement: guidelines for reporting observational studies. *The Lancet, 370*(9596), 1453–1457.
- Wald, R. M., & Mertens, L. L. (2022). Hypoplastic Left Heart Syndrome Across the Lifespan: Clinical Considerations for Care of the Fetus, Child, and Adult. *Canadian Journal of Cardiology, 38*(7), 930-945.
- Warnes, C. A. (2005). The adult with congenital heart disease: born to be bad? *Journal of the American College of Cardiology, 46*(1), 1-8.
- Warnes, C. A., Liberthson, R., Danielson, G. K., Dore, A., Harris, L., Hoffman, J. I., Somerville, J., Williams, R. G., & Webb, G. D. (2001). Task force 1: the changing profile of congenital heart disease in adult life. *Journal of the American College of Cardiology, 37*(5), 1170–1175.
- Wawrzynski, S. E., Schaefer, M. R., Schvaneveldt, N., & Alderfer, M. A. (2021). Social support and siblings of children with cancer: A scoping review. *Psycho-Oncology, 30*(8), 1232–1245.
- Weems, C. F., & Overstreet, S. (2008). Child and adolescent mental health research in the context of Hurricane Katrina: An ecological needs-based perspective and introduction to the special section. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology, 37*(3), 487-494.
- Wei, H., Roscigno, C. I., Hanson, C. C., & Swanson, K. M. (2015). Families of children with congenital heart disease: A literature review. *Heart & lung, 44*(6), 494-511.
- Weldner, P. W., Myers, J. L., Gleason, M. M., Cyran, S. E., Weber, H. S., White, M. G., & Baylen, B. G. (1995). The Norwood operation and subsequent Fontan operation in infants with complex congenital heart disease. *The Journal of thoracic and cardiovascular surgery, 109*(4), 654-662.
- Werner, E. E. (2013). What can we learn about resilience from large-scale longitudinal studies? In *Handbook of resilience in children* (pp. 87-102). Springer.

- Wilkins, K. L., & Woodgate, R. L. (2005). A review of qualitative research on the childhood cancer experience from the perspective of siblings: a need to give them a voice. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, 22(6), 305-319.
- Williams, P. D., Lorenzo, F. D., & Borja, M. (1993). Pediatric chronic illness: effects on siblings and mothers.
- Wilson, R., Ross, O., & Griksaitis, M. (2019). Tetralogy of fallot. *BJA education*, 19(11), 362.
- Wilson, W. M., Valente, A. M., Hickey, E. J., Clift, P., Burchill, L., Emmanuel, Y., Gibson, P., Greutmann, M., Grewal, J., & Grigg, L. E. (2018). Outcomes of patients with hypoplastic left heart syndrome reaching adulthood after Fontan palliation: multicenter study. *Circulation*, 137(9), 978-981.
- Witzel, A., & Reiter, H. (2012). *The problem-centred interview*. Sage.
- Winterbotham, S., & du Preez, J. (2016). Psychosocial wellbeing in active older adults: A systematic review of qualitative literature. *International Review of Sport and Exercise Psychology*, 9(1), 96-115.
- Woodgate, R. L., Edwards, M., Ripat, J. D., Rempel, G., & Johnson, S. F. (2016). Siblings of children with complex care needs: their perspectives and experiences of participating in everyday life. *Child: care, health and development*, 42(4), 504-512.
- Woodward, C. S. (2011). Keeping children with congenital heart disease healthy. *Journal of Pediatric Health Care*, 25(6), 373-378.
- Woolf-King, S. E., Anger, A., Arnold, E. A., Weiss, S. J., & Teitel, D. (2017). Mental health among parents of children with critical congenital heart defects: a systematic review. *Journal of the American Heart Association*, 6(2), e004862.
- Wray, J., & Maynard, L. (2005). Living with congenital or acquired cardiac disease in childhood: maternal perceptions of the impact on the child and family. *Cardiology in the Young*, 15(2), 133-140.
- Yamamoto, T., & Schindler, E. (2016). Patienten mit angeborenem Herzfehler für nicht herzchirurgische Eingriffe—Anästhesiologisches Management. *AINS-Anästhesiologie· Intensivmedizin· Notfallmedizin· Schmerztherapie*, 51(03), 152-158.
- Yao, Z., & Wang, Z. (2014). Concreteness of positive word contributions to affective priming: An ERP study. *International Journal of Psychophysiology*, 93(3), 275-282.
- Yuen, M., Hall, o. J., Masters, G. A., Nephew, B. C., Carr, C., Leung, K., Griffen, A., McIntyre, L., Byatt, N., & Moore Simas, T. A. (2022). The effects of breastfeeding on maternal mental health: a systematic review. *Journal of Women's Health*, 31(6), 787-807.
- Zhang, J., Ko, J. M., Guileyardo, J. M., & Roberts, W. C. (2015). A review of spontaneous closure of ventricular septal defect. *Baylor University Medical Center Proceedings*,

- Zhang, S., Ding, S., Cai, M., Bai, J., Zhang, M., Huang, Y., & Zheng, J. (2018). Impact of upper respiratory tract infections on perioperative outcomes of children undergoing therapeutic cardiac catheterisation. *Acta Anaesthesiologica Scandinavica*, 62(7), 915-923.
- Zimmerman, M. S., Smith, A. G. C., Sable, C. A., Echko, M. M., Wilner, L. B., Olsen, H. E., Atalay, H. T., Awasthi, A., Bhutta, Z. A., & Boucher, J. L. (2020). Global, regional, and national burden of congenital heart disease, 1990–2017: a systematic analysis for the Global Burden of Disease Study 2017. *The Lancet Child & Adolescent Health*, 4(3), 185-200.

**10 Anhang**

	Seite
Anhang A: Beitrag I: Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review.....	120
Beitrag I: Supplementary material.....	139
Beitrag I: References of supplementary material.....	143
Anhang B: Beitrag II: A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease.....	144
Beitrag II: Supplementary material.....	164
Beitrag II: References of supplementary material.....	182
Anhang C: Beitrag III: Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease.....	183
Beitrag III: Supplementary material.....	204
Beitrag III: References of supplementary material.....	223

**Anhang A: Beitrag I: Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review**

Version accepted by *Journal of Child Health Care* on 13-Mar-2021

**Psychosocial Wellbeing and Quality of Life in Siblings of Children with Congenital Heart Disease: A Systematic Review**

Alice S Schamong<sup>1</sup>, Hannah Liebermann-Jordanidis<sup>2</sup>, Konrad Brockmeier<sup>1</sup>, Elisabeth Sticker<sup>3</sup>, Elke Kalbe<sup>2</sup>

**Abstract**

Congenital heart disease (CHD) is a major global health problem. Until recently, the siblings of this group did not receive much attention. This review, conducted from November 2019 to October 2020, aims to summarize knowledge about psychosocial wellbeing and quality of life (QoL), associated factors, and interventions for siblings of children with CHD. Systematic searches were conducted in PubMed, PsycINFO, PsycARTICLES, Web of Science via EBSCOhost, and CENTRAL. Twelve articles were included. Results showed that psychosocial wellbeing was impaired in 14% to 40% of siblings. Negative impact of illness was highest for CHD-siblings compared to siblings of children with cancer, cystic fibrosis, or diabetes. QoL was impaired in up to one-third. Siblings of children with CHD and cancer rated their QoL lower than those of siblings of children with cystic fibrosis or type 1 diabetes. Associated factors were sibling age, gender, socioeconomic status, miscarriage, previous sibling death, visibility of illness, and severity of condition. Only one of two interventions focused on siblings of CHD children. Although data is scarce and inhomogeneous, it indicates that siblings of CHD-children suffer from lower psychosocial wellbeing and QoL than siblings of children with other chronic conditions. Interventions to improve their situation should be developed.

**Keywords:**

Heart defects, congenital; siblings; child; quality of life

---

<sup>1</sup>University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology, Germany

<sup>2</sup>University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Department of Medical Psychology | Neuropsychology & Gender Studies and Center for Neuropsychological Diagnostics and Intervention (CeNDI), Germany

<sup>3</sup>University of Cologne, Faculty of Human Science, Department of Psychology, Germany

Corresponding author:

Alice Schamong, Klinik und Poliklinik für Kinderkardiologie, Uniklinik Köln, Kerpener Straße 62, Köln 50937, Germany.

Email: [alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de)



## Introduction

Congenital heart disease (CHD) is the result of a defect in the structure of the heart and great vessels of a newborn (Casey, 2016). Almost one-third of all major congenital anomalies consist of heart defects (Dolk et al., 2010). Birth prevalence is estimated at 8-9/1000 live births (Bernier et al., 2010) and has increased substantially over the last decades. Due to massive breakthroughs in cardiac diagnostics and surgery, about 1.35 million newborns are born with CHD worldwide each year (van der Linde et al., 2011).

Negative consequences of CHD and its treatment—such as intense fear, uncertainty about the future, and the life-threatening potential of the disease—may have profound psychological and social consequences for patients and their families, including siblings, such as loss of social contacts and psychological difficulties (Denniss et al., 2019).

Until recently, siblings of this group have not been a focus of attention. Due to the special needs of children with CHD, siblings are at high risk of being pushed into the background (Naylor and Prescott, 2004). Several studies and meta-analyses suggested that siblings of children with chronic conditions often endorsed more psychosocial difficulties and lower quality of life (QoL) compared to age-matched peers (Sharpe and Rossiter, 2002; Vermaes et al., 2012; Woodgate et al., 2016). They suffer from decreased parental attention and increased parental expectations; partial transfer of responsibility for the child with the chronic condition; conflicts of loyalty, anger, jealousy, or guilt; restriction of societal participation; and stigmatization (Sharpe and Rossiter, 2002; Vermaes et al., 2012; Woodgate et al., 2016). About 30% of siblings of children with chronic conditions are affected by moderate to high stress (Kowalewski et al., 2014).

Recently, Parker et al. (2020) reviewed the literature about the impact of having a sibling with CHD and examined eleven studies. The main conclusions were that siblings experienced adverse life changes that negatively impacted their school-performance, behavior, QoL, and health.

To date, no review has investigated the frequency and nature of impairment of psychosocial wellbeing and QoL within siblings of children with CHD. Furthermore, no reviews have aimed to identify associated factors of these constructs, nor found interventions including these children.

## Aims

This systematic review aims to identify the frequency and nature of reduced psychosocial wellbeing and QoL in siblings of children with CHD to determine if they are affected more strongly and in different ways than siblings of children with other chronic conditions. Moreover, the review seeks to explore factors associated with the effect of a siblings' CHD as potential starting points for intervention design. Finally, it aims to identify interventions that directly involve siblings of children with CHD and the benefits they provide.

## Methods

**Data Sources, Search Strategy, and Quality Appraisal**

Methods for this systematic review were prespecified in a protocol that was registered in PROSPERO in November of 2019: [https://www.crd.york.ac.uk/prospero/display\\_record.php?RecordID=156295](https://www.crd.york.ac.uk/prospero/display_record.php?RecordID=156295). A search of PROSPERO and Cochrane databases prior to starting this review found that aside from Parker et al.’s (2020) review, no similar literature reviews were published or were currently being conducted. Based on the key search terms CHD, siblings, psychosocial wellbeing, and QoL that were determined via a PICO-scheme, iterative scoping searches were performed that led to the final PubMed search strategy displayed in Table **Fehler! Verweisquelle konnte nicht gefunden werden..**

A broad search strategy was selected to minimize the risk of omitting relevant literature by not matching all search terms reflecting psychosocial wellbeing and QoL. Systematic searches without publication date limits were performed in PubMed via MEDLINE, PsycINFO, PsycARTICLES, Web of Science via EBSCOhost, and CENTRAL, as well as manual searches of reference lists. Automatic alerts were set up for the searches, which were manually re-run before final analysis on September 26, 2020. Two researchers independently screened articles. Discrepancies were resolved by discussion.

**Table 1. Literature Search Strategy.**

"Heart Defects, Congenital"[MeSH Terms] OR Congenital Heart Defect*[tiab] OR Heart Abnormalit*[tiab] OR Pediatric Cardiac Surgery*[tiab] OR Congenital Cardiac defect*[tiab] OR Congenital Cardiac diseas*[tiab] OR Child Heart diseas*[tiab] OR Congenital Heart malformation*[tiab] OR Pediatric cardiology[tiab] OR Childhood chronic heart diseas*[tiab]
AND
Siblings [MeSH Terms] OR "Sibling Relations"[MeSH Terms] OR sibling*[tiab] OR sib*[tiab] OR brother*[tiab] OR sister*[tiab]

Inclusion and exclusion criteria are displayed in Table 2.

**Table 2.** *Inclusion and Exclusion Criteria.*

	Included	Excluded
Type of Study	Original studies of all designs Published in peer-reviewed journals	Non-original empirical articles Not published in peer-reviewed journals
Type of participants	Siblings of children with a CHD diagnosis Parents of a child with CHD and another healthy child	No self/other assessment of a sibling of a child with a CHD diagnosis
Type of outcome	Psychosocial wellbeing & QoL Interventions including siblings of children with CHD	Any outcome not related to psychosocial wellbeing & QoL or interventions
Language	English German	Others

**Instruments Measuring Psychosocial Wellbeing and Quality of Life**

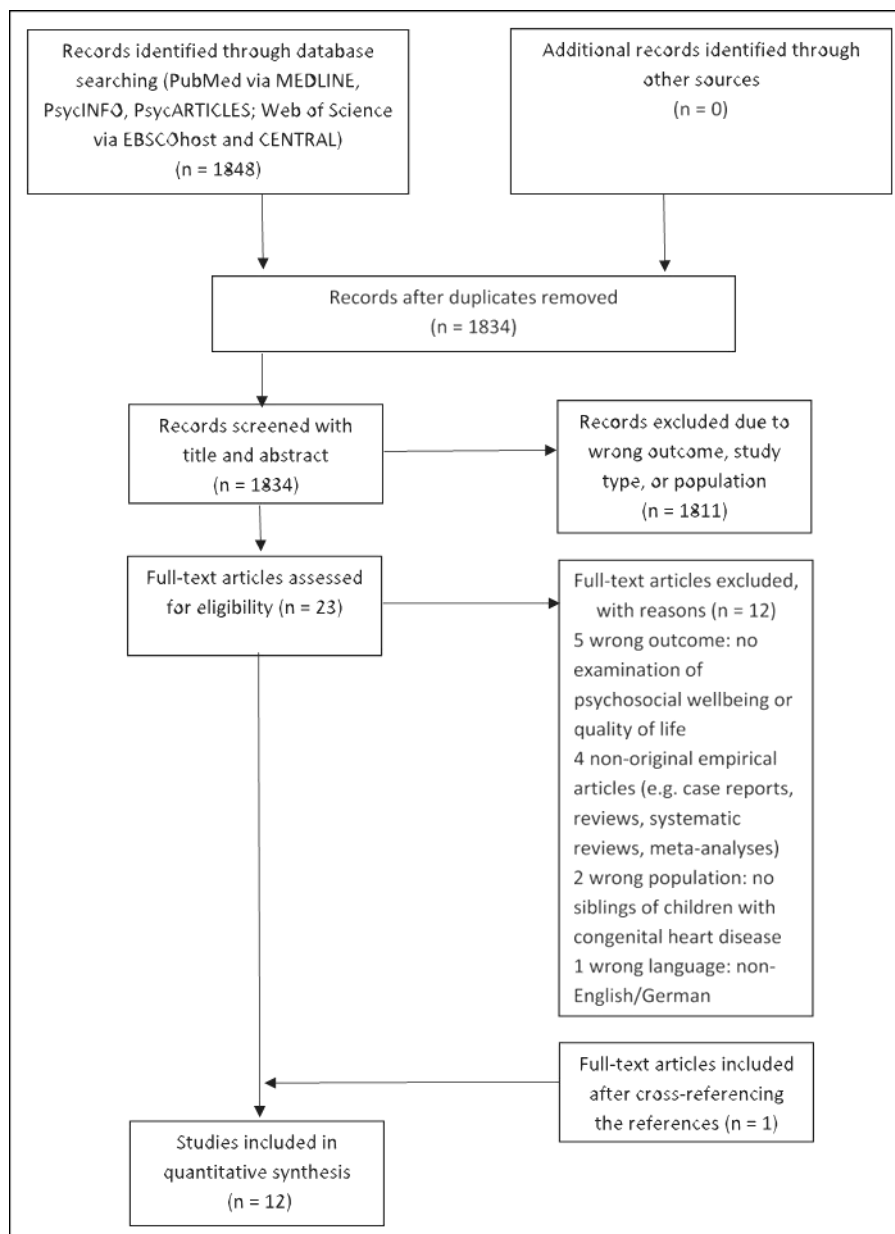
Instruments measuring impaired psychosocial wellbeing are differentiated from instruments that claim to measure impaired QoL. This allows distinguishing between a selective influence of a sibling’s CHD on the narrower construct of psychosocial wellbeing, defined by psychological and social dimensions of QoL (psychological distress, impairment, and behavior problems; Tsang et al., 2012) and an influence on the general QoL, covering psychosocial, physical, and material wellbeing (Lipscorn et al., 2006).

**Results**

A total of 1848 references were imported into Covidence (Veritas Health Innovation, 2016). Ultimately, 12 studies were included. Figure 1 depicts the study selection process.

The review of the included studies led to the following key themes: (1) psychosocial wellbeing and sub-themes of frequency and nature of impairment, comparisons to siblings of children with other chronic conditions, and comparisons of sibling and parental perspectives; (2) QoL and sub-themes of frequency and nature of impairment and comparisons to siblings of children with other chronic conditions; (3) associated factors; and (4) Intervention studies.

**Figure 1.** PRISMA Diagram of the Study Selection Process



**Description of the Chosen Studies**

All except one study (Wray and Maynard, 2005) revealed incomplete reporting in either methods, results, or discussion. One study reported insufficiently in all areas except the aims (Apley et al., 1967). A table with the results of the quality appraisal can be found under supplementary material.

Characteristics of the studies and instruments used are presented in Table 3. The twelve included studies were conducted between 1967 and 2019. Five studies were 24 years or older.

Three studies were conducted in the US, two in the UK, and one each in Australia, Belgium, Canada, Netherlands, Pakistan, Philippines, and Saudi Arabia.

Two studies used both quantitative and qualitative methods (Williams et al., 1993; Wray and Maynard, 2005), eight studies used quantitative questionnaires (Apley et al., 1967; Azhar et al., 2016; Caris et al., 2018; Havermans et al., 2015; Janus and Goldberg, 1997; Lavigne and Ryan, 1979; Mughal et al., 2011; van der Mheen et al., 2019), and two studies applied qualitative methodology (Menke, 1987; Redshaw and Wilson, 2012).

Two studies used sibling reports only (Havermans et al., 2015; Menke, 1987), seven studies focused on the proxy-reports of parents exclusively (Apley et al., 1967; Janus and Goldberg, 1997; Lavigne and Ryan, 1979; Mughal et al., 2011; van der Mheen et al., 2019; Williams et al., 1993; Wray and Maynard, 2005), and the remaining three studies reported both sibling and parent perspectives (Azhar et al., 2016; Caris et al., 2018; Redshaw and Wilson, 2012).

Four studies investigated siblings of children with CHD and other chronic conditions (Havermans et al., 2015; Lavigne and Ryan, 1979; Menke, 1987; Williams et al., 1993). Two studies provided a control group of siblings of healthy children (Havermans et al., 2015; Lavigne and Ryan, 1979).

Reported information and sample sizes varied widely between studies. Some reported numbers of included families without indicating the number of siblings, some reported the number of siblings, and some the numbers of children with CHD (Apley et al., 1967; Azhar et al., 2016; Caris et al., 2018; Janus and Goldberg, 1997).

Most studies included siblings of children with various types of CHD (Apley et al., 1967; Azhar et al., 2016; Havermans et al., 2015; Lavigne and Ryan, 1979). A single study (Caris et al., 2018) exclusively considered children with hypoplastic left heart syndrome (HLHS), one of the severest forms of CHD. Another study did not further define the participants' CHD (Menke, 1987).

Seven studies provided information about psychosocial wellbeing (Apley et al., 1967; Caris et al., 2018; Janus and Goldberg, 1997; Lavigne and Ryan, 1979; Menke, 1987; van der Mheen et al., 2019; Williams et al., 1993; Wray and Maynard, 2005). One study directly investigated QoL with a designated questionnaire (Azhar et al., 2016), while one study reported aspects of QoL (Mughal et al., 2011). Another study reported both psychosocial wellbeing and QoL (Havermans et al., 2015).

A total of seven studies reported factors associated with psychosocial wellbeing (Apley et al., 1967; Caris et al., 2018; Janus and Goldberg, 1997; Lavigne and Ryan, 1979; Menke, 1987; van der Mheen et al., 2019; Williams et al., 1993).

Two intervention studies were identified; one directly included siblings (Redshaw and Wilson, 2012; van der Mheen et al., 2019).

**Table 3.** *Characteristics of the Included Studies*

[not included for copyright issues]

## **Psychosocial Wellbeing**

### ***Frequency and Nature of Impairment of Psychosocial Wellbeing***

A UK study detected impaired psychosocial wellbeing in up to 40% of siblings. Further, 27% were affected by behavior problems, 13% by psychosomatic disorders, and 24% by both (Apley et al., 1967). However, the study had considerable methodological weaknesses including an unclear recruitment procedure and undefined questionnaires; it also was conducted more than 50 years ago. Another UK study (Wray and Maynard, 2005) found that 25% of parents gave more time to the sick child, and 30% of siblings felt impaired by the extra attention to the sick child, felt they were being prevented from doing things as a family, and indicated fear of getting too close to the sick sibling. Canadian researchers Janus and Goldberg (1997) reported that clinical behavior problems were prevalent in 14% of children, which was not significantly different from the data of a normative sample (Hobbs et al., 1985).

### ***Psychosocial Wellbeing of CHD Siblings Compared to Other Illness Groups***

Belgian researchers examined siblings of children with cancer, type 1 diabetes, cystic fibrosis, CHD, and a control group. Negative impact of illness was rated highest for CHD siblings,  $F(4,127) = 8.61, p < 0.001$  (Havermans et al., 2015). A Philippine study compared reports of mothers of children with cardiac and neurological conditions. The extent of decrease in caretaking activities of siblings was significantly greater among mothers of children with CHD than those with neurologic conditions,  $t(98) = 2.74, p < 0.010$  (Williams, 1993). Another study with siblings of children with cancer, cystic fibrosis, CHD, myelomeningocele, and severe burns showed that CHD siblings were more likely to have concerns about the CHD children (64%), compared to children with burns (36%) and cancer 20% (Menke, 1987).

### ***Psychosocial Wellbeing: Sibling vs. Parent Perspective***

A US study investigated the degree of adjustment of siblings to their brothers' and sisters' HLHS (Caris et al., 2018) and found that caregivers reported significantly more adjustment problems ( $M = 2.4, SD = 0.4$ ) than siblings themselves ( $M = 2.3, SD = 0.3$ ; overall negative adjustment score: 1-4, higher scores = more negative adjustment).

### ***Factors Associated with Psychosocial Wellbeing***

One study found that siblings' reported adjustment grew worse with age and that increasing *sibling age* was associated with caregivers' negative adjustment ratings (Caris et al., 2018). Another study found that typically siblings who were older than the child with the chronic condition had protective concerns, albeit for all five disease groups; see line seven in Table 4 ( $\chi^2 = 7.27, df = 4, p = 0.010$ ; Menke, 1987).

Williams et al.'s (1993) study revealed that *female siblings* were given twice as many caretaking activities as their male counterparts. The families participating in the study were primarily of *lower socioeconomic status*, and typically had four to six children. Mothers reported a significant increase in sibling's household help (mean difference -0.5,  $t(98) = 2.32$ ,  $p < 0.050$ ) and a decrease in social activities (mean difference 0.99,  $t(98) = 5.39$ ,  $p < 0.010$ ).

One study found that 33% of siblings classified as maladjusted came from families with previous *miscarriages* and 18% from families with previous *sibling death* (Apley et al., 1967). These characteristics applied only to the 4% of siblings not classified as maladjusted.

Siblings of patients with *visible conditions* (i.e., plastic surgery) were significantly more socially withdrawn than siblings of patients with invisible conditions such as CHD/hematology,  $F(1,191) = 14.98$ ,  $p < 0.010$  (Lavigne and Ryan, 1979).

Results concerning *severity of condition* were inconsistent. Within one study more than twice as many parents of the most severely ill children (incurable CHD) reported sibling difficulties, compared to siblings of the least severely ill children (Apley et al., 1967). Another study found siblings of children with less complex CHD were affected negatively in 16% of families, compared to 43% of siblings of children with complex CHD, and 60% of children with transplants (Wray & Maynard, 2005). Another study revealed that parents perceived themselves as having increased inattention towards siblings (Janus and Goldberg, 1997) when the ill child's treatment was more intensive, whereas siblings had more behavior problems when the patients' condition required less treatment (Janus and Goldberg, 1997). Greater illness accommodation, defined as how often mothers had to take the patients' condition into account, was reported in families with siblings with behavior problems. In contrast, a US study (Lavigne and Ryan, 1979) failed to find a relationship between severity of illness and psychopathology in CHD siblings.

## **Quality of Life**

### ***Frequency and Nature of Impairment of Quality of Life***

A study from Saudi Arabia (Azhar et al., 2016) found that QoL was affected in up to one-third of siblings. Specifically, 33% were jealous, 19% felt neglected by their parents, and 11% had impaired school performance. Psychological impact on the siblings' QoL ( $M = 24.96$ ,  $SD = 24.6$ ) was almost as high as the impact on CHD children ( $M = 28.7$ ,  $SD = 28.82$ ; impact scores: 0-100; Azhar et al., 2016). A Pakistani study revealed a negative effect on schooling in 23% and health in 26% of siblings (Mughal et al., 2011).

### ***Quality of Life of CHD Siblings Compared to Other Illness Groups***

A Belgian study (Havermans et al., 2015) revealed that siblings of children with CHD or cancer rated their QoL lower than those of children with cystic fibrosis or type 1 diabetes regarding behavior and internalizing problems,  $F(4,127) = 4.03$ ,  $p < 0.010$ ; mental health,  $F(4,127) = 4.74$ ,  $p < 0.010$ , and self-esteem,  $F(4,127) = 3.25$ ,  $p < 0.050$ .



## Interventions

Two intervention studies were identified. An Australian qualitative interview study (Redshaw and Wilson, 2012) did not target siblings directly, but provided benefits to them through the Heart Beads Program. Children received beads for each intervention, such as conversing with their siblings about their feelings and experiences related to CHD. Parents emphasized the benefits of the beads. For instance, touching beads enabled parents to explain what was happening, and collecting and threading beads helped siblings in the process of meaning construction around CHD.

The Congenital Heart Disease Intervention Program (CHIP)–Family was the first intervention that directly included siblings (van der Mheen et al., 2019). The program consisted of a 1-day group workshop and aimed to improve the psychosocial wellbeing of children with CHD, their siblings, and parents. Children performed exercises for self-esteem, emotion regulation, relaxation, problem solving, positive thinking, and physical training. Parents underwent problem prevention therapy, psychoeducation, parenting training, and medical education. The study contained no sibling questionnaire; “Family Functioning” was the only survey including siblings. No significant differences were found between the CHIP-Family and care-as-usual groups ( $p = 0.628$ ,  $t$ -values not reported).

## Discussion

The present review, in addition to Parker et al.'s (2020), provides insight into the frequency and nature of impairment of psychosocial wellbeing and QoL in siblings of children with CHD. The study aimed to determine associated factors of these constructs, and identified one intervention directed at them. Although the review was limited by heterogeneous databases and by studies having different objectives, samples, instruments, and study quality, some valuable information was extracted.

### Psychosocial Wellbeing and Quality of Life

Psychosocial wellbeing was impaired in 14%-40% of siblings, which implies that the psychosocial wellbeing of at least 60% remained unaffected (Apley et al., 1967; Janus and Goldberg, 1997; Wray and Maynard, 2005). Methodological weaknesses such as unclear recruitment procedures, undefined questionnaires, and the age of Apley et al.'s (1967) study render it incomparable to contemporary clinical care. Although its results must be interpreted with caution, this seminal study was the first to address the difficulties of siblings of children with CHD. Janus and Goldberg (1997), who found that 14% of siblings were affected, only considered participants with problems within a clinical range (1  $SD$  above average). Thus, the actual proportion of those affected in their sample was likely higher.

QoL was impaired in up to one-third of siblings, which similarly suggests that the QoL of at least two-thirds was unimpaired (Azhar et al., 2016; Mughal et al., 2011). Psychosocial wellbeing was affected negatively in a higher percentage of CHD siblings than QoL, which suggests that factors already covered by QoL questionnaires, such as strong school bonding or close relationships, act as protective factors that reduce psychosocial stress (Werner, 2013).

One study found that the overall negative impact of illness on psychosocial wellbeing was rated highest for CHD siblings, and siblings of children with CHD or cancer rated their QoL lower than those of children with cystic fibrosis or type 1 diabetes (Havermans et al., 2015). An explanation might be the permanently life-threatening potential of CHD, which results in elevated levels of fear and hospital stays with absent parents from the moment of the sibling's birth. This typically does not occur with children with cancer, cystic fibrosis, or diabetes. The difference is especially obvious with complex CHD, which accounts for about 40% of those affected, as lifelong recurring medical intervention is required with no chance of recovery (Caris et al., 2018). CHD siblings also were more likely to have concerns about the CHD child relative to siblings of children with burns and cancer (Menke, 1987).

The study by Azhar et al. (2016) found the psychological impact of CHD on the siblings' QoL was almost as high as the impact on affected children. This may be because siblings often suffer from feelings of fear and uncertainty and must cope with the physical absence of at least one parent during hospital stays. Additionally, enduring parental distress can lead to refusal of parental attention and affection (Caris et al., 2018).

#### **Factors Associated with Psychosocial Wellbeing**

In one study, siblings and parents reported worse adjustment as sibling age increased, although the study was restricted to children diagnosed with HLHS, one of the severest forms of CHD (Caris et al., 2018). Another study found that siblings older than the CHD child had more protective concerns about them (Menke, 1987). With increasing age, siblings could develop a better understanding of the consequences of their brothers or sisters' CHD. As siblings age, their cumulative number of stressful experiences increases, such as parental absence due to the CHD child's hospital stays. Although results suggested that increasing age was a risk factor, the data is too scarce to draw final conclusions.

One study showed that female siblings assumed twice as many caretaking activities (Williams et al., 1993), implying that female gender negatively influenced free time. However, the findings were not restricted to CHD siblings and the affected families were primarily of lower socioeconomic status, with about four to six children. The results might therefore not apply to siblings of families with fewer children and higher socioeconomic status (Williams et al., 1993). Additionally, the study was conducted in the Philippines more than 25 years ago, where a traditional image of women still prevailed (Lauser, 2008). It is questionable whether a similar finding would occur today in a society with a less traditional image of women.

Williams' (1993) results concerning a significant increase in siblings' household activities and a decrease in social activities affirms the negative influence of a family's lower socioeconomic status. Financial difficulties might lead to a higher general stress level within a family because financial resources to mitigate the adverse effects of a chronic condition are lacking. Additionally, the extent of

decrease in sibling caretaking was significantly greater among mothers of children with CHD than those with neurological conditions (Williams et al., 1993). This might be a result of the frequent feeding difficulties of CHD children (Clemente et al., 2001).

Previous miscarriage or death of a sibling was suggested by one study to negatively influence the psychosocial wellbeing of siblings (Apley et al., 1967). Whether the previous experience of losing a sibling functions as a type of negative priming needs further investigation (Kempson et al., 2008).

One study compared psychological adjustment of siblings of children with CHD, hematology, plastic surgery conditions, and healthy children (Lavigne and Ryan, 1979). No relationship between severity of illness and psychopathology was found within the CHD group (Lavigne and Ryan, 1979). Moreover, siblings of children with visible plastic surgery conditions were significantly more socially withdrawn than siblings of children with invisible conditions such as CHD, which suggests the invisibility of a condition may be a potential protective factor (Lavigne and Ryan, 1979). Nevertheless, the study by Lavigne and Ryan (1979) was conducted over 40 years ago, when plastic surgery techniques to treat conditions like cleft palate were still unsatisfactory and higher levels of stress from such a condition were more likely than today. Also, CHD cannot be called invisible per se. Especially in complex CHD, cyanosis and the resulting blue skin color, as well as a highly perceptible limitation of physical exercise capacity and operation scars, are prevalent (Feltez et al., 2015; Horner et al., 2000).

Regarding severity of condition, ambiguous results were found. Wray and Maynard (2005) found siblings of children with mild CHD were negatively affected about three times less than siblings of children with complex CHD and four times less than siblings of children with transplants, leading to the conclusion that severity of CHD is positively correlated with negative effects. Another study discovered twice as many parents of children with incurable CHD reported sibling difficulties compared to those with mild CHD (Apley et al., 1967). Other researchers failed to find a relationship between severity of illness and psychopathology within the CHD group (Lavigne and Ryan, 1979). One study found that parents experienced siblings as having more behavior problems when the condition required less treatment, although stronger parental inattention towards siblings was perceived by parents when treatment was more intensive (Janus and Goldberg, 1997). These findings indicated that siblings were at the highest risk for behavior problems either in families with children with the most complex CHD or in families characterized by a high level of family accommodation and a relatively mild condition, which may lead to siblings' poor acceptance of the situation (Janus and Goldberg, 1997). Another potential explanation was siblings' greater striving for normality when the condition was relatively mild, which might be perceived as unreachable and thereby result in elevated levels of frustration (Janus and Goldberg, 1997).

Due to the studies' restricted statistical analyses, causal conclusions regarding risk factors cannot be drawn. Additionally, there is a lack of results concerning protective factors, as is found in

the context of research on resilience, such as low impulsivity, close relationship to at least one parent, intensive parental supervision, sound academic achievement, strong school bonding, a positive class climate, and living in a nondeprived neighborhood (Werner, 2013). Since up to two-thirds of siblings show no impairment in either psychosocial wellbeing or QoL, it is probable that protective factors function within these families. To better understand which factors influence psychosocial wellbeing and QoL of siblings, and in which direction, future research should consider protective factors as well as risk factors and use statistical methods that allow causal conclusions to be drawn, such as regression analyses, analyses of variance, and path models. Before-and-after designs are difficult to implement in this field because CHD cannot be predicted until shortly before birth, and it is therefore impossible to test siblings beforehand (Friedberg et al., 2009).

### **Interventions**

In Redshaw and Wilson's (2012) study of the Heart Beads Program, parents reported a positive effect on their healthy siblings by involving them in the creation of a family narrative of their siblings' CHD and by showing appreciation of their feelings and experiences. This enabled siblings to play an active role in the family's coping and reduced behavior problems. The study of the CHIP–Family program (van der Mheen et al., 2019), which was the first intervention directed at siblings of CHD children, similarly provided information and explanations about siblings' experiences. The positive coping mechanisms introduced by the CHIP workshops might have helped the whole family to integrate the child's CHD into their daily life, although the results did not show significant differences between the intervention and care-as-usual groups (van der Mheen et al., 2019). Inclusion of a questionnaire for siblings would have provided better insight into a possible improvement of their psychosocial wellbeing through the intervention.

Clearly, more interventions must be developed, and studies will have to determine their effects, the mechanisms of these effects, and predictors of benefits.

### **Strengths**

To the best of our knowledge, this is the first systematic review that comprehensively covers how the frequency and nature of a siblings' CHD affects their healthy sibling's psychosocial wellbeing and QoL, factors associated with this influence, and intervention studies directed at these children.

Another strength is this review's quality standard, which meets the highest methodological requirements in the areas of review protocol, study selection, data collection, and risk of bias assessment. The AXIS tool (Downes et al., 2016) was chosen for quality appraisal, which does not provide a numerical scale to assess study quality. Numerical scales can be problematic, as their outputs are not linear and as such difficult to sum or weight (Greenland & O'Rourke, 2001), especially when studies are inconsistent in design and outcome variables like the included studies.

### **Limitations**

Limitations include inconsistencies in the reviewed studies' design and outcome variables, which complicate comparability and render meta-analysis impossible.

The transferability to current siblings of CHD children is questionable due to the high age (>24 years) of five of the included studies (Apley et al., 1967; Janus and Goldberg, 1997; Lavigne and Ryan, 1979; Menke, 1987; Williams et al., 1993) and considering the highly improved treatment options and changed family and environmental factors, such as the necessity of employment for both parents.

Differences between the health systems of the nine study countries further limit the generalizability of the results. CHD has a different social and financial impact on families and siblings in countries with state insurance and easy access to maximum medical care, such as the Netherlands (Van de Ven and Schut, 2008), than in countries where only a few, wealthy people have access to health care, such as Pakistan (Kurji et al., 2016).

### **Future Research**

Qualitative interview studies were helpful to identify the needs of CHD siblings. Based on their results and the results of our review, controlled cross-sectional studies comparing contemporary parental and sibling reports are required to better understand the influence CHD has on siblings' psychosocial wellbeing and QoL. By emphasizing the sibling perspective, eventual parental overestimation (Caris et al., 2018), as well as potential sibling underestimation, could be avoided.

To empower the development of a tailored intervention directed at CHD siblings, it is also crucial to precisely estimate who is at risk. Possible risk factors, such as sibling age, gender, socioeconomic status, miscarriage or previous sibling death, and severity of condition should be more deeply investigated, as well as intra- and interpersonal protective factors like low impulsivity, close relationships, or strong school bonding. Siblings were most stressed by mental health problems—such as anxiety, sadness, depression, worries, jealousy, and feelings of rejection—and behavior and school problems. Exercises for these domains could represent starting points for an intervention.

Trans-diagnostic aspects of research on siblings of children with a chronic condition, which were identified by a systematic review on siblings of youth with developmental disabilities, should be considered (Tudor and Lerner, 2015). These include the need for an effective assessment of sibling needs and the benefits of psychoeducation, identification of the family system factors, the need for manualized treatment programs, and collaborative approaches to performing sibling interventions.

### **Implications for Practice**

Healthcare providers and social work professionals should take the above results into account when dealing with siblings of children with CHD and their families. They should remind caregiv-

ers of the emotional challenges siblings face to prevent them from becoming so-called “shadow children,” and they should learn from families that appear better adapted to the adverse conditions. For instance, these actions could be realized in self-help groups.

### Conclusion

Psychosocial wellbeing and QoL were impaired in more than one-third of siblings. The negative impact of illness was highest for CHD siblings, and they rated their QoL lower relative to siblings of children with other chronic conditions. Data is inconclusive regarding associated factors. Future research should focus on these points to support the development of interventions to improve CHD siblings' situations. Practitioners, as well as parents, should incorporate the above results when dealing with CHD siblings.

### Declaration of conflicting interests

The author(s) declared no potential conflicts of interest.

### Funding

The author(s) received financial support for this article by 'Verein der Freunde und Förderer des Herzzentrums des Universitätsklinikums Köln e.V.'.

### ORCID iD

Alice S Schamong  <https://orcid.org/0000-0001-6275-2679>

### Supplementary material

Supplementary material is available online.

### References

- Achenbach TM (1991) Manual for the Child Behavior Checklist/4-18 and 1991 profile. *University of Vermont, Department of Psychiatry*.
- Apley J, Barbour RF and Westmacott I (1967) Impact of congenital heart disease on the family: preliminary report. *British Medical Journal* 1(5532): 103–105.
- Azhar AS, AlShammasi ZH and Higgi RE (2016) The impact of congenital heart diseases on the quality of life of patients and their families in Saudi Arabia. Biological, psychological, and social dimensions. *Saudi Medical Journal* 37(4): 392–402.

- Bernier P-L, Stefanescu A, Samoukovic G, et al. (2010) The challenge of congenital heart disease worldwide: epidemiologic and demographic facts. *Seminars in thoracic and cardiovascular surgery. Pediatric Cardiac Surgery Annual* 13(1): 26–34.
- Caris EC, Dempster N, Wernovsky G, et al. (2018) Perception scores of siblings and parents of children with hypoplastic left heart syndrome. *Congenital Heart Disease* 13(4): 528–532.
- Casey F (2016) Congenital heart disease: the evolution of diagnosis, treatments, and outcomes. In: Christopher McCusker and Frank Casey (eds) *Congenital Heart Disease and Neurodevelopment: Understanding and Improving Outcomes*. Amsterdam: Elsevier, pp. 3–13.
- Clemente C, Barnes J, Shinebourne E, et al. (2001) Are infant behavioural feeding difficulties associated with congenital heart disease? *Child: Care, Health and Development* 27(1): 47–59.
- Denniss DL, Sholler GF, Costa DSJ, et al. (2019) Need for routine screening of health-related quality of life in families of young children with complex congenital heart disease. *The Journal of Pediatrics* 205: 21-28.e2.
- Dolk H, Loane M and Garne E (2010) The prevalence of congenital anomalies in Europe. *Preventive Medicine of Non Communicable Disease* 686: 349–364.
- Downes MJ, Brennan ML, Williams HC, et al. (2016) Development of a critical appraisal tool to assess the quality of cross-sectional studies (AXIS). *BMJ open* 6(12): e011458.
- Duvall EM *Family development, ed 5, Philadelphia, 1977*. JB Lippincott Co.
- Epstein NB, Baldwin LM and Bishop DS (1983) The McMaster Family Assessment Device. *Journal of Marital and Family Therapy* 9(2): 171-180.
- Feltez G, Coronel CC, Pellanda LC, et al. (2015) Exercise capacity in children and adolescents with corrected congenital heart disease. *Pediatric Cardiology* 36(5): 1075–1082.
- Friedberg MK, Silverman NH, Moon-Grady AJ, et al. (2009) Prenatal detection of congenital heart disease. *The Journal of Pediatrics* 155(1): 26-31.
- Greenland S and O'Rourke K (2001) On the bias produced by quality scores in meta-analysis, and a hierarchical view of proposed solutions. *Biostatistics (Oxford, England)* 2(4): 463–471.
- Havermans T, Croock ID, Vercruyse T, et al. (2015) Belgian siblings of children with a chronic illness: Is their quality of life different from their peers? *Journal of Child Health Care for Professionals Working With Children in the Hospital and Community* 19(2): 154–166.

- Hobbs N, Perrin JM and Ireys HT (1985) *Chronically ill children and their families: Problems, prospects, and proposals from the Vanderbilt study*. San Francisco: Jossey-Bass.
- Horner T, Liberthson R and Jellinek MS (2000) Psychosocial profile of adults with complex congenital heart disease. *Mayo Clinic Proceedings* 75(1): 31–36.
- Janus M and Goldberg S (1997) Treatment characteristics of congenital heart disease and behaviour problems of patients and healthy siblings. *Journal of Paediatrics and Child Health* 33(3): 219–225.
- Kempson D, Conley VM and Murdock V (2008) Unearthing the construct of transgenerational grief: The “Ghost” of the sibling never known. *Illness, Crisis & Loss* 16(4): 271–284.
- Kowalewski K, Spilger T, Jagla M, et al. (2014) „Supporting Siblings“. *Prävention und Gesundheitsförderung* 9(4): 312–320.
- Kurji Z, Premani ZS and Mithani Y (2016) Analysis of the health care system of Pakistan: lessons learnt and way forward. *J Ayub Med Coll Abbottabad* 28(3), 601.
- Landgraf JM, Abetz L and Ware JE (1999) *Child Health Questionnaire (CHQ): A user's manual*. Landgraf & Ware.
- Lauser A (2008) Philippine Women on the Move: Marriage across Borders. *International Migration* 46(4): 85–110.
- Lavigne JV and Ryan M (1979) Psychologic adjustment of siblings of children with chronic illness. *Pediatrics* 63(4): 616–627.
- Lipscomb J, Gotay CC and Snyder C (eds) (2006) *Outcomes assessment in cancer: Measures, methods, and applications*. Cambridge, UK: Cambridge Univ. Press.
- Menke EM (1987) The impact of a child's chronic illness on school-aged siblings. *Children's Health Care* 15(3): 132–140.
- Miller LC (1977) *Louisville Behavior Check List*. Western Psychological Services.
- Mughal AR, Sadiq M, Hyder SN, et al. (2011) Socioeconomic status and impact of treatment on families of children with congenital heart disease. *Journal of the College of Physicians and Surgeons Pakistan JCPSP* 21(7): 398–402.
- Naylor A and Prescott P (2004) Invisible children? The need for support groups for siblings of disabled children. *British Journal of Special Education* 31(4): 199–206.
- Parker R, Houghton S, Birchard E, et al. (2020) Impact of congenital heart disease on siblings: A review. *Journal of Child Health Care* 24(2): 297-316.
- Redshaw S and Wilson V (2012) Sibling involvement in childhood chronic heart disease through a bead program. *Journal of Child Health Care* 16(1): 53–61.



- Sahler OJ and Carpenter PJ (1989) Evaluation of a camp program for siblings of children with cancer. *American Journal of Diseases of Children (1960)* 143(6): 690–696.
- Sharpe D and Rossiter L (2002) Siblings of children with a chronic illness: a meta-analysis. *Journal of Pediatric Psychology* 27(8): 699–710.
- Tudor ME and Lerner MD (2015) Intervention and support for siblings of youth with developmental disabilities: a systematic review. *Clinical Child and Family Review* 18(1):1-23.
- Tsang KLV, Wong PYH and Lo SK (2012) Assessing psychosocial well-being of adolescents: a systematic review of measuring instruments. *Child: Care, Health and Development* 38(5): 629–646.
- Van der Linde D, Konings EEM, Slager MA, et al. (2011) Birth prevalence of congenital heart disease worldwide: a systematic review and meta-analysis. *Journal of the American College of Cardiology* 58(21): 2241–2247.
- Van der Mheen M, Meentken MG, van Beynum IM, et al. (2019) CHIP-Family intervention to improve the psychosocial well-being of young children with congenital heart disease and their families: results of a randomised controlled trial. *Cardiology in the Young* 29(9): 1172–1182.
- Van de Ven WP and Schut FT (2008) Universal mandatory health insurance in the Netherlands: a model for the United States? *Health Affairs* 27(3): 771-781.
- Veritas Health Innovation (2016) *Covidence systematic review software*. Veritas Health Innovation Melbourne, Australia.
- Vermaes IPR, van Susante AMJ and van Bakel HJA (2012) Psychological functioning of siblings in families of children with chronic health conditions: a meta-analysis. *Journal of Pediatric Psychology* 37(2): 166–184.
- Werner EE (2013) *What Can We Learn about Resilience from Large-Scale Longitudinal Studies?* Springer US.
- Williams PD, Lorenzo FD and Borja M (1993) Pediatric chronic illness: Effects on siblings and mothers. *Maternal-Child Nursing Journal* 21(4): 111–121.
- Woodgate RL, Edwards M, Ripat JD, et al. (2016) Siblings of children with complex care needs: their perspectives and experiences of participating in everyday life. *Child: Care, Health and Development* 42(4): 504–512.
- Wray J and Maynard L (2005) Living with congenital or acquired cardiac disease in childhood: maternal perceptions of the impact on the child and family. *Cardiology in the Young* 15(2): 133–140.



**Beitrag I: Supplementary material**

**Supplementary Table A1**

*The PRISMA checklist: Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses*

	#	Checklist item	Reported on page #
TITLE			
Title	1	Identify the report as a systematic review, meta-analysis, or both.	1
ABSTRACT			
Structured summary	2	Provide a structured summary including, as applicable: background; objectives; data sources; study eligibility criteria, participants, and interventions; study appraisal and synthesis methods; results; limitations; conclusions and implications of key findings; systematic review registration number.	1
INTRODUCTION			
Rationale	3	Describe the rationale for the review in the context of what is already known.	1-2
Objectives	4	Provide an explicit statement of questions being addressed with reference to participants, interventions, comparisons, outcomes, and study design (PICOS).	2-3
METHODS			
Protocol and registration	5	Indicate if a review protocol exists, if and where it can be accessed (e.g., Web address), and, if available, provide registration information including registration number.	3
Eligibility criteria	6	Specify study characteristics (e.g., PICOS, length of follow-up) and report characteristics (e.g., years considered, language, publication status) used as criteria for eligibility, giving rationale.	3-4
Information sources	7	Describe all information sources (e.g., databases with dates of coverage, contact with study authors to identify additional studies) in the search and date last searched.	3
Search	8	Present full electronic search strategy for at least one database, including any limits used, such that it could be repeated.	3
Study selection	9	State the process for selecting studies (i.e., screening, eligibility, included in systematic review, and, if applicable, included in the meta-analysis).	4
Data collection process	10	Describe method of data extraction from reports (e.g., piloted forms, independently, in duplicate) and any processes for obtaining and confirming data from investigators.	3-4
Data items	11	List and define all variables for which data were sought (e.g., PICOS, funding sources) and any assumptions and simplifications made.	4
Risk of bias in individual studies	12	Describe methods used for assessing risk of bias of individual studies (including specification of whether this was done at the study or outcome level), and how this information is to be used in any data synthesis.	5-6
Summary measures	13	State the principal summary measures (e.g., risk ratio, difference in means).	Not applicable
Synthesis of results	14	Describe the methods of handling data and combining results of studies, if done, including measures of consistency (e.g., I <sup>2</sup> ) for each meta-analysis.	Not applicable

Note. Adapted following Moher et al., 2009.





Authors	Apley et al.	Azhar et al.	Caris et al.	Havermans et al.	Janus & Goldberg	Lavigne & Ryan	Menke	Mughal et al.	Redshaw & Wilson	van der Mheen et al.	Williams et al.	Wray & Maynard
Discussion												
Were the authors' discussions and conclusions justified by the results?	No	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes
Were the limitations of the study discussed?	No	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	No	No	Yes	Yes	No	Yes
Other												
Were there any funding sources or conflicts of interest that may affect the authors' interpretation of the results?	Not reported	No	No	No	No	No	Not reported	No	No	No	Not reported	Not reported
Was ethical approval or consent of participants attained?	No	Yes	No	Yes	Yes	No	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes

Note. Adapted following Downes et al., 2016.

**Beitrag I: References of supplementary material**

Downes, Martin J., Marnie L. Brennan, Hywel C. Williams, and Rachel S. Dean. "Development of a critical appraisal tool to assess the quality of cross-sectional studies (AXIS)." *BMJ open* 6, no. 12 (2016): e011458.

Moher, D., Liberati, A., Tetzlaff, J., Altman, D. G., & PRISMA Group\*. (2009). Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: the PRISMA statement. *Annals of internal medicine*, 151(4), 264-269.

**Anhang B: Beitrag II: A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease**



**A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease**

Alice S Schamong<sup>1</sup>, Konrad Brockmeier<sup>1</sup>, Ann-Kristin Folkerts<sup>2</sup>, Ümran S Seven<sup>2</sup>, Elke Kalbe<sup>2</sup>

**Abstract**

Research with siblings of children with congenital heart disease (CHD) is scarce, although more than one-third of them experience limitations on their quality of life. This interview study aims to explore the diagnosis-associated experience of German siblings of children with CHD, their interest in a potential intervention, and potential key topics and contextual conditions of such an intervention. Interviews with 10 siblings aged 10 to 21 and a respective parent were conducted in August to October 2021, resulting in 20 interviews. Negative experiences associated with CHD included concerns regarding hospitalization, health deterioration, and the death of the child with CHD, as well as burdens including reduced family activities, less parental attention and support and extended family meals. Positive experiences included perceived positive consequences of CHD, such as strong family cohesion and empathy towards people with chronic illnesses. Furthermore, siblings experienced enhanced coping mechanisms, such as having conversations with friends and family about the high prevalence of CHD and successful treatment or using distractions such as entertainment or study. Siblings' reported interest in a future intervention included empathy, peer support, and studying medical information on CHD. These findings should be used for counseling and developing tailored interventions to support these siblings.

*Keywords:* Heart defects, congenital; siblings; child; adolescent health; parents

---

<sup>1</sup> University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology, Germany

<sup>2</sup> University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Department of Medical Psychology | Neuropsychology & Gender Studies and Center for Neuropsychological Diagnostics and Intervention (CeNDI), Germany

**Corresponding author:**

Alice Schamong, Klinik und Poliklinik für Kinderkardiologie, Uniklinik Köln, Kerpener Straße 62, Köln 50937, Germany.

Email: [alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de)

## Introduction

Research with siblings of children with congenital heart disease (CHD) is scarce (Schamong et al., 2021; Parker et al., 2020) despite the large number of children affected (Liu et al., 2019). About one-third of such siblings experience quality of life (QoL) impairment (Schamong et al., 2021), which negatively impacts their academic performance, behavior, and health (Parker et al., 2020). Moreover, they rate their QoL lower (Havermans et al., 2015) and have more concerns about their brothers or sisters than siblings of children with other chronic conditions, such as cancer or type 1 diabetes (Menke, 1987). Indeed, Azahr et al. (2016) found that the psychological impact of CHD on siblings was almost as high as the impact on the child with CHD.

Factors negatively associated with siblings' psychosocial well-being were solely of a demographic nature, such as female sex and visibility of disease (Schamong et al., 2021; Moon et al., 2021). Little is known about the negative experiences of siblings associated with diagnosis, such as their concerns and burdens, although these might impact their QoL. Bichard et al.'s (2022) interview study identified experience of siblings of children with CHD during the Coronavirus disease 2019 (COVID-19) and identified enhanced family cohesion as a positive consequence of having a brother or sister with CHD. Beyond this, no further positive consequences of CHD or sibling coping mechanisms have been identified. However, such factors might be responsible for the finding that the QoL of two-thirds of siblings remains unimpaired (Schamong et al., 2021).

To date, two interventions exist that involved, but did not directly target the support siblings of children with CHD (Redshaw and Wilson, 2012; van der Mheen et al., 2019). Furthermore, it is unknown whether such siblings are interested in participating in a supportive intervention and, if they are, what kind of support they desire (Schamong et al., 2021).

Quantitative approaches have not fully determined the factors associated with a sibling's CHD diagnosis. Furthermore, siblings' interest in a supportive intervention has not yet been explored, nor has the information required to guide such an intervention's development.

## Aim

We aimed (i) to explore the perceived negative and positive experiences of siblings of children with CHD associated with the diagnosis and (ii) to scope out siblings' interest in a potential intervention and identify key topics and contextual conditions for such an intervention with sibling-parent dyads.

## Methods

The study protocol was registered on the German Clinical Trials Register (ID: DRKS00025031; <https://drks.de/search/de/trial/DRKS00025031>) and approved by the Ethics Committee of the Medical Faculty of the University of Cologne (no. 21-1195). Reporting is based on Tong et al.'s (2007) consolidated criteria for qualitative studies. The COREQ-checklist is included in the supplementary materials.

### Target population and inclusion and exclusion criteria

The target population was adolescents aged 10–21 years. The sample was restricted to this age range to ensure participants had sufficient levels of experience and capacity for self-reflection, enabling insightful responses to the interview questions (Oerter and Dreher, 2008). To explore potential age-related differences, participants were divided into three groups according to their developmental stage: prepuberty (10–13 years), early adolescence (14–17), and late adolescence (18–21; Oerter and Dreher, 2008). A parent of each adolescent was also interviewed, since Caris et al. (2018) found that caregivers estimated siblings' adjustment problems to be significantly more severe than the siblings themselves. By including both perspectives, eventual parental overestimation or sibling underestimation might be prevented. Beyond that, parents often have insights into their children's concerns and needs (Medeiros et al., 2016). All participants were required to have good German language skills.

### Participant recruitment

Participants were recruited via online invitations on the social media sites of the non-profit associations "Bundesverband Herzranke Kinder e.V." (The German Association for Children with CHD) and "Herzkind e.V." (The Heart Child Association), resulting in a convenience-sampling strategy. Almost the same number of participants was recruited for each developmental stage. The interviews were analyzed directly after they were conducted, and participant recruitment was stopped after data saturation was claimed, following Moser and Korstjens (2018).

### Implementation of the interviews

Prospective participants who responded to our study invitation were informed in detail about the study's aims and procedures via phone, after which participant information documents, including information about data protection (included in the supplementary materials), were e-mailed to them. We provided participant information documents for parents and different versions for younger (10–13 years) and older siblings (14–21 years), according to their respective levels of understanding. If participants met inclusion criteria, oral and written consent was obtained from parents, siblings, and each child with CHD, as their age and diagnosis were also recorded. Parents gave additional written consent when their children were under 18. Subsequently, an interview appointment was scheduled.

Due to the COVID-19 pandemic, interviews were conducted via video calls (RED Medical Systems GmbH, 2021). Participants were alone in a room during the interviews.

### **Short questionnaires, interview guidelines, and observational sheet**

Before the interviews, participants completed short questionnaires on their sex, age, birth order position, student or occupational status, siblings' diagnosis, perceived visibility of siblings' CHD, and perceived social support. Parents were additionally asked about previous miscarriages and loss of a child in the family. The severity of CHD was categorized as 'simple,' 'moderate,' or 'complex' according to diagnosis following tables 4 to 6 by Warnes et al. (Warnes et al., 2001).

We used a problem-centered interview approach, which is appropriate when the research question is concrete but there is limited supporting literature (Witzel and Reiter, 2012). The interview guideline for the study was developed based on the research gap identified by Schamong et al.'s (2021) systematic review. It contains six questions exploring experiences such as siblings' concerns, burdens, coping mechanisms, and perceived positive impact of a sibling's CHD. Siblings' interest in a supportive intervention was also explored using four questions addressing their interest, reasons for participation, topics of interest, and contextual conditions. Siblings and parents were asked the same questions, but parents should indicate what the siblings might experience and need from their perspective.

Observational sheets, used to capture non-verbal and situational aspects of the interviews, were filled in after the interviews. Short questionnaires, interview guideline, and observational sheet are included in the supplementary materials.

### **Data analysis**

A qualitative content analysis was performed, from which a category system emerged deductively based on the interview questions (Mayring and Fenzl, 2019). Transcripts were entered into MAXQDA (VERBI Software, 2020) and then analyzed.

Initially, researcher Y.F. coded the transcripts from the first three sibling interviews. Researcher A.S. coded the same transcripts and verified the coding's traceability and completeness. Based on this, an initial category system emerged. Then, Y.F. and A.S. coded the remaining transcripts, discussing and adding further categories after each transcript. Slight differences were solved through discussion. Content saturation was reached per definition when no new analytical information was thought to be extracted regarding our interview questions. This was achieved when each aspect of the lowest subcategory had been repeated at least once (Moser and Korstjens, 2018). Parents' interviews were analyzed equally.

After analysis of the interviews, quotations were translated by A.S., who speaks English fluently. Random back-translations were performed to ensure translations were faithful to the original (Regmi et al., 2010).

**Findings**

Ten interviews with sibling-parent dyads were conducted between August and October 2021, resulting in 20 interviews. None of the participants withdrew and all content was comprehensible. An unequal sex ratio and ratio of older to younger siblings was detected. All siblings indicated the exact diagnosis of their siblings' CHD. Participants' characteristics from the short questionnaires are displayed in Table 1.

**Table 1**  
*Characteristics of the participants*

Participants' characteristics	Siblings (n = 10)	Parents (n = 10)
Sex (n [%])		
Male	2 (20%)	2 (20%)
Female	8 (80%)	8 (80%)
Age in years		
Median (IQR)	15 (8)	47 (13)
Position in sibling order		
Younger sibling	2 (20%)	-
Older sibling	8 (80%)	-
School/study/occupation		
(n [%])	8 (80%)	-
Student (school, university)	2 (20%)	-
Trainee/Employee	-	6 (60%)
Freelancer	-	2 (20%)
Stay-at-home	-	2 (20%)
Unspecified	-	-
Severity of CHD		
Simple	-	-
Moderate	4 (40%)	4 (40%)
Complex	6 (60%)	6 (60%)
Perceived visibility of CHD		
Visible	4 (40%)	4 (40%)
Not visible	6 (60%)	6 (60%)
Perceived social support		
Very good	5 (50%)	4 (40%)
Good	5 (50%)	2 (20%)
Sufficient	-	2 (20%)
Insufficient	-	2 (20%)
Previous miscarriage	-	4 (40%)
Previous death of a sibling	-	1 (10%)

Note: CHD: congenital heart disease; severity of CHD was assigned according to Warnes et al.'s (2001; Table 4-6) classification.

The interviews lasted between 11 and 35 min. Participants showed great interest in expressing their unique experiences. Siblings' responses did not vary significantly in content with increasing age. However, they became more differentiated, reflected by longer interview lengths in participants aged 18–21 (*Mdn* = 18.59 min), compared to siblings aged 10–13 (*Mdn* = 14.30 min) and 14–17 (*Mdn* = 13.01 min). Siblings of children with complex CHD expressed more extensive concerns and burdens than those with moderate CHD (*Mdn* = 14.06 min vs. 13.06 min).

From observation, younger siblings (10–13 years) seemed more nervous during the interviews than older siblings, expressed through finger-chewing and chair-rocking (Kushki et al., 2013).

**The category system**

Three main categories with respective subcategories emerged, which are displayed within Table 2. Contextual aspects of these subcategories are presented below Table 2.

**Table 2**

*The category system*

Main categories	Subcategories
Siblings perceived negative experiences associated with CHD	Siblings’ concerns regarding CHD Siblings’ burdens caused by CHD
Siblings perceived positive experiences associated with CHD	Perceived positive consequences of CHD Siblings’ mechanisms to cope with CHD
Siblings support needs	Interest in participation in a supportive intervention Reasons for participation and topics of interest Contextual conditions

Note: CHD: congenital heart disease.

**Siblings’ perceived negative experiences associated with CHD**

***Siblings’ concerns regarding CHD***

Siblings dreaded the deterioration in health and death of the child with CHD. *“So, the biggest concern is definitely, ..., that his health could get worse quickly or that it could just be lethal.”*

*(Nea, 21 years)*

One had lost a sibling due to complications from a heart transplant, and two participants’ siblings remained disabled due to oxygen deficiency during surgery. Others expressed concerns about the child with CHD being hospitalized and were unsure whether they correctly understood their sibling’s health status. Some siblings were afraid of infecting the child with CHD with COVID-19. Several siblings feared their sibling might be excluded or shamed. Parents also mentioned siblings’ fear of their parents’ grief, in case their brother or sister would die.

*“Fear of loss, clearly fear of death... Based on this, concerns about the parents... that the parents would suffer a lot if the sick child died, and there is the worry about that”*

*(Neven, 40 years)*

***Siblings’ burdens caused by CHD***

Siblings claimed reduced parental attention and support and parents’ constant worries regarding CHD. Family activities were limited when parents attended CHD treatments. Fear of COVID-19 infections led parents to ban siblings from meeting with friends. *“Because of Corona, I would say that I often argued with my parents because I was angry that I couldn’t meet with my friends because of my sister.*

*So, I was often really, really angry, but, at the same time, I also knew that if I did that and got infected, that I would then feel guilty, and that's why that was really hard."*

*(Sarah Ute, 15 years)*

Anxiety expressed by the child with CHD, and their questions regarding CHD, further stressed siblings. Extended family meals due to eating difficulties of the child with CHD bored and strained siblings. Following parents' siblings partially took over their responsibilities during hospital stays and were concerned siblings might suffer from a loss of routine or might feel helpless during their absence.

*"And, of course, the longtime that parents spend in the hospital. It's also a difficult situation for a small child to understand why things are like this."*

*(Steff, 48 years)*

Parents also observed signs of developmental delays or immaturity among siblings, and negative impacts of CHD on the sibling relationship.

### ***Siblings' perceived positive experiences associated with CHD***

The perceived positive consequences of CHDAs perceived by siblings and parents, positive consequences of CHD include strong cohesion and deep bonds within the family.

*"And... it's important to me that I... have a close relationship with my brother. We already have a close relationship, and that was also deepened by the heart transplantation."*

*(Gudrun, 19 years)*

Parents extended by the family's exceptional ability to cope with extreme situations.

*"A strong sense of cohesion and the realization that you can master even the most extreme things, that you can master them at all as a family, and also that you see how you master them."*

*(Enea, 42 years)*

Siblings additionally mentioned their appreciation of and empathy towards the child with CHD and people with chronic illnesses, appreciation of their own health, and personal maturation. Furthermore, the parents named the siblings' strengths and ability to live in the here and now.

#### ***Siblings' mechanisms to cope with CHD***

Conversations with friends and family about CHD's high prevalence the numerous siblings affected supported siblings, as well as shared experiences of successful CHD treatment.

*"And what also helped me a lot, for example, with the heart valve, was to hear from other people who had also received one."*

*(Marlene, 21 years)*

Distractions such as entertainment or studying, and parents also disciplining the child with CHD helped siblings to cope. Parents stated that the following also facilitated coping: family activities, including excursions; understanding and empathy from others during activities such as rehabilitation;

evidence of the child with CHD developing positively; religion; relieving siblings of responsibilities at home; and involving siblings in planning for required CHD-treatments.

*“The sibling should be involved in communication, decisions, and planning. That the sibling also has the feeling of being part of the whole, for example, when a hospital stay is planned.”*

*(Manfred, 42 years)*

## **Siblings' support needs**

### ***Siblings' interest in participating in a supportive intervention***

Most siblings were interested in participating in a potential intervention, had participated in the past, or would participate in difficult situations, such as when the child with CHD needed a catheter or operation. Only one participant did not want to participate at all. Parents complained about a general lack of support systems for siblings of children with CHD. ***Reasons for participation and key topics of interest***

Siblings were interested in peer support and empathy, such as communication with and compassion from other's affected to feel understood and 'normalized'. *“I like the idea that the children realize ‘I'm not alone with something like this. There are many people who share a similar everyday life, or who know similar worries at home. And that doesn't make me special,’ because I realize that my children's primary goal is not to stand out.”*

*(Elsbeth, 48 years)*

Moreover, siblings were interested in explanations of their siblings' diagnoses and prognoses, and advice on dealing with their concerns and burdens.

*“I think, to alleviate my fear, new knowledge that I could acquire, for example, if the ... physician would... enlighten me. Maybe find a connection or find people with whom you... get along with well and who share the situation a bit.”*

*(Fritz, 21 years)*

Parents additionally suggested introducing siblings to young adults with CHD, with a stable state of health, providing examples of a viable future for children with CHD. Furthermore, parents recommended coaching siblings to advocate for their needs.

### ***Contextual conditions of a potential supportive intervention***

Preferences regarding *group composition* varied, including an intervention exclusively for siblings, for siblings and children with CHD, for siblings and parents, and one that included all family members. Some siblings suggested separating siblings and children with CHD into different groups. Furthermore, a mixture of single-member and group settings, as well as group settings for same-aged siblings, were proposed. Suggested *group sizes* varied from 5 to 15 participants. Siblings desired physicians to provide



medical information, while parents recommended social workers and psychologists. Both proposed two or three *intervention providers*. Most siblings and parents desired in-person support. One sibling suggested alternating between online and in-person support. Siblings and parents suggested weekend trips that include conversations, creative activities, games. Finally, horse-riding workshops, as already provided for children with CHD by the 'German Association for Children with CHD', which might have psychological benefit on the self-concept (Kendall et al., 2014), as well as on-demand support via digital applications were proposed.

Concerning *frequency*, some participants required an initial session and further sessions on demand. Others desired either one session every one to two weeks, or every three to four weeks. It was suggested that *session durations* could be adjusted to individual needs, varying from 1.5 to 3 hours, sufficient time to communicate and share experiences. Parents proposed sessions lasting for a few hours to the whole day. In terms of *total duration* of the intervention, participants' answers ranged from three to four times, a weekend, a week, four months, up to three years, depending on the siblings' ages and support needs.

## Discussion

Our study is the first that provides insight into the diagnosis-associated experiences of German siblings of children with CHD. It includes siblings' perceived negative experiences associated with CHD, such as concerns and burdens, and perceived positive experiences, such as strong family cohesion and successfully applied coping mechanisms. Moreover, it disclosed siblings' interest in a potential supportive intervention, including topics such as empathy, peer support, medical information on CHD, and contextual conditions. It additionally considered the parents' perception of these aspects and found, according to previous research (Caris et al., 2018), that siblings' and parents' perceptions differ.

### **Siblings' perceived negative experiences associated with CHD**

Siblings generally feared disease progression leading to the possible death of their sibling. Aware that a child cannot recover from moderate or complex CHD (Abdurrahman, 2023; Bhatt et al., 2015), families are alert for CHD suddenly developing into a crisis, such as endocarditis (Cahill et al., 2019). Of the participants' siblings, two children had been disabled due to oxygen deficiency during surgery and one had died due to complications from a heart transplant. Anticipating or experiencing such situations can be emotionally overwhelming, threatening siblings' basic psychological needs for security and control (Holderman, 2017; Long et al., 2015).

Children with moderate and complex CHD have a significantly increased risk of developmental disorders, with adverse effects on behavior, psychosocial functioning, school performance, and QoL (Hövels-Gürich and Latal, 2021). These effects might explain why their siblings fear the children with CHD might be excluded or shamed.

Having a child with moderate or complex CHD in the family means frequent parental absence (Biber et al., 2019) and a high percentage of parental depression or anxiety (Woolf-King et al., 2017). This could explain why siblings stated that their parents' constant worries burdened them. Parents' restrictions on siblings' social activities during COVID-19 were appropriate to protect the child with CHD. However, this negatively impacted siblings by depriving them of social contact and peer support, precisely those aspects that siblings reported helping them to cope (Bichard et al., 2022). As siblings also suffered from a loss of attention and support from their parents and reduced family activities in a similar way to siblings of children with cancer, peer contact plays a special role as a protective factor in this context (Wawrzynski et al., 2021). Last, siblings stated they felt stressed by extended family meals due to eating difficulties of the child with CHD, which is a common phenomenon in children with CHD, that also puts a huge burden on the parents and leads to an unpleasant atmosphere in situations that should actually bring the family closer together (de Man et al., 2021).

### **Siblings' perceived positive experiences associated with CHD**

The siblings rated strong family cohesion, empathy, and personal growth as positive consequences of CHD. These findings align with other studies about siblings of children with CHD (Bichard et al., 2022), or other chronic conditions (Niinomi and Fukui, 2022). Parents valued siblings' personal resources and competencies, such as good health, emotional strength, and mindfulness.

Coping was facilitated by distractions such as peer contact, family support and communication and information about CHD and its high prevalence, which might have made the siblings feel 'less alone'. Besides, shared reports of successful CHD treatment, might have strengthened siblings' trust in the current treatment options. From the parental perspective, family activities (e.g., excursions), rehabilitation programs, and empathy from affected peers helped siblings cope with the situation. Additionally, age-appropriate development of the child with CHD, relieving siblings of responsibilities around CHD, e.g., household chores during hospital stays, and involving them in planning regarding future CHD-treatment, all eased coping. These aspects mirror previous research on siblings with other chronic conditions (Hartling et al., 2014; Feriante et al., 2022) and largely coincide with classic resilience factors, such as reliable relationships and environments, communication skills, self-confidence, problem-solving, and planning abilities (Werner, 2013).

### **Interest in a supportive intervention, potential key topics, and contextual conditions**

Siblings indicated great interest in participating in a supportive intervention tailored to their issues. Although no intervention exists that directly targets siblings of children with CHD, they were included in two aforementioned interventions. In the first, parents emphasized the positive effect of involving siblings in processing their situation through communication and parental empathy for siblings' unique experiences (Redshaw and Wilson, 2012). The second allowed siblings to raise awareness of their issues by participating in a workshop developed for families of children with CHD (Van der Mheen et al., 2019). In accordance with these studies, our findings regarding siblings' successfully applied coping mechanisms, and other studies on support for siblings of children with CHD and other chronic illnesses (Bichard et al., 2022; Feriante et al., 2022; Hartling et al., 2014; Vella Gera et al., 2021), future interventions should provide opportunities for siblings' open communication with affected peers and their own parents to validate and 'normalize' siblings' feelings. Siblings should be enabled to share their concerns, burdens, and coping strategies, thereby experiencing empathy and gaining input on coping better with CHD and providing their coping mechanisms to others. Training parents on supporting siblings by communicating with them, expressing empathy, and coaching them to advocate for their needs may be crucial elements in intervention design. We emphasize this because our findings, supported by Caris et al. (2018), reveal that the perceptions of siblings and parents can differ.

The German ModuS sibling workshop provides illness education and teaches coping strategies, such as self-esteem enhancement, thereby reducing and preventing the stress of siblings of chronically ill or disabled children. At the same time, parents are sensitized to the needs of siblings (Ernst et al., 2020). This workshop could serve as a model that could be extended to include CHD-specific issues identified within this study, such as medical information about CHD and in particular about constantly improving medical treatments and prognoses (Su et al., 2023), to reduce siblings' fears of the deterioration of their sibling's health or even their sibling's death (Feriante et al., 2022). In combination with this medical information, the parental suggestion of inviting an adult with CHD with a stable state of health could provide an encouraging example and provide siblings a perspective on a viable future for the child with CHD.

Findings regarding contextual conditions of a potential intervention varied widely but provide a valuable template for a quantitative examination to investigate which conditions can meet the needs of most siblings of children with CHD.

### **Strengths**

This is the first qualitative study to provide insight into the diagnosis-associated experiences of German siblings of children with CHD. It discloses their interest in a supportive intervention and identifies information to guide the development of such an intervention. Furthermore, it incorporates siblings' and parents' perceptions of these aspects to prevent eventual parental overestimation or sibling underestimation (Caris et al., 2018). It thus holds important implications for future interventions to support siblings of children with CHD. Another strength is this study's quality standards, that followed the guidance published by Tong et al. (2007).

### **Limitations**

The unequal sex ratio and the ratio of older to younger siblings is a limitation since the literature suggests a link between age, sex, and QoL of siblings of children with CHD (Schamong et al., 2021). Differences in interview length are probably due to the more nuanced rhetorical abilities of older compared to younger siblings (Christie and Viner, 2005). Parents in the study refused to provide information about their income, so the effect of socioeconomic status on study outcomes remains unclear. Only siblings of children with moderate or complex CHD participated, which could have biased the findings. This resulted from our convenience sampling-strategy, since simple CHD can be surgically corrected and needs less invasive treatment. Consequently, children with simpler CHD require fewer interventions than children with more complex CHD (Mandalenakis et al., 2020), which is why their siblings might have had less motivation to participate in such a study. Siblings of children who remained disabled or died due to oxygen deficiency during surgery were not excluded, as this is a possible, albeit rare, consequence of CHD treatment (Barkhuizen et al., 2021; McQuillen et al., 2007). We included

these participants experience because qualitative studies do not claim representative results but capture participants' diverse perspectives on a particular topic to gain insight into phenomena and provide starting points for examining findings quantitatively (Hammarberg et al., 2016). The fact that parents' and adolescents' experiences were different should be further considered when interpreting the findings and deriving implications for practice and future research.

During interviews, younger adolescents could have been especially nervous due to the topic's sensitive nature and the presence of an adult interviewer (Witzel and Reiter, 2012). Two of the sibling participants knew the interviewer (AS) as their sibling's psychologist from their Pediatric Cardiology Unit. To address any resulting power imbalance, she attempted to separate her clinical and research responsibilities by reflecting toward participants on her positionality and researcher intent before the interviews began (Bourke, 2014). Within five years at her workplace and as a researcher, A.S. had noticed that siblings' voices were often unheard, which led her to address the topic. Nevertheless, her positionality, its effects on participants' statements, and her interpretation of those statements remain potential influencing factors (Bourke, 2014). Eventually participants withheld negative statements that they considered socially undesirable for fear of negative evaluation or consequences. Otherwise, participants could have valued the unique opportunity to have an unaffected person interested in their issues, which often go unheard (Bourke, 2014).

We claimed content saturation was reached following Moser's and Korstjens' (2018) definition, which can be considered questionable regarding our aim to explore potential age-related differences, with just three or four interviews within each age group. Another limitation is the lack of interpretation services for participants who do not speak German.

### **Future Avenues for Research**

How siblings' concerns and burdens would be distributed in a larger sample remains unclear.

However, this might be significant in the future development of an intervention, as it should consider issues that affect the largest possible proportion of siblings. Which of the issues are specific to CHD

is still unknown and emphasizes the need for larger sample sizes and comparison with siblings of children with other chronic diseases. Moreover, siblings' concerns and burdens might enable the identification of siblings with elevated support needs. Positive consequences of CHD and siblings' coping mechanisms could also provide essential implications for elements of future interventions.

It should be noted that the impact of COVID-19 on siblings will become redundant after the pandemic. Therefore, future research and intervention development should not focus on this aspect.

**Implications for Practice**

Health care providers working in pediatric cardiology should consider our findings and pay attention to siblings as well, and in particular to those of children with moderate and complex CHD (Moon et al., 2021; Schamong et al., 2021). Psychologists and social workers could empower siblings to talk about their concerns and burdens and develop support options with them, for example by facilitating contact with affected peers with the help of CHD self-help groups. To increase sibling-QoL, and diminish the risk for later mental illness (Kessler and Wang, 2008), parents should be advised to support siblings' natural coping mechanisms by enabling opportunities for open communication about CHD within the family and support siblings within their health and school issues, as well as their social activities such as meeting friends and doing sports. To avoid negative effects of a burdened sibling relationship on personal development, future relationships, and psychological functioning (Moon et al., 2021), parents should be sensitized that siblings need to be involved in planning CHD treatments, such as hospital stays, and require special attention and support during these challenging times. This could be facilitated by involving other family members of the child with CHD or volunteer family helpers (Kinderhospizdienste, 2021; Thomas et al., 2023) more closely family support and in inpatient care. Above, caregivers should be advised to treat their children as equally as possible (Ahn and Lee, 2018), which includes disciplining the child with CHD as well. Finally, doctors and nurses should involve siblings by providing them medical information about CHD and planned treatments, to reduce their concerns (Vella Gera et al., 2021; Gramszlo et al., 2020).

### **Conclusion**

Concerns such as fear of hospitalization, health deterioration, and the death of the child with CHD, and burdens such as reduced family activities, parental attention, and support, as well as extended family meals were identified as negative experiences associated with CHD. Positive experiences associated with CHD were perceived positive consequences of CHD, such as strong family cohesion and empathy towards the sibling with CHD and people with other chronic illnesses. Positive outcomes also included siblings' coping mechanisms, such as having conversations with friends and family about the high prevalence of CHD and successful CHD treatment, and distractions such as entertainment or study. The siblings were highly interested in a supportive intervention that included peer empathy and support and medical information on CHD. Findings should be used for counseling and developing a disease-specific intervention for siblings with CHD. In addition, parents who are strongly under pressure should also be relieved by relatives or volunteer family helpers, so that they can devote more time and energy to their healthy siblings.

### **Declaration of conflicting interests**

The author(s) declared no potential conflicts of interest.

### **Funding**

The author(s) received financial support for this article by 'Verein der Freunde und Förderer des Herzzentrums des Universitätsklinikums Köln e.V.'.

ORCID iD

Alice S Schamong <https://orcid.org/0000-0001-6275-2679>

### **Supplementary material**

Supplementary material is available online.

## References

- Abdurrahman L (2023) Adult congenital heart disease update. *Current Problems in Pediatric and Adolescent Health Care*: 101399.
- Ahn J-A and Lee S (2018) The adaptation process of mothers raising a child with complex congenital heart disease. *Journal of Child Health Care* 22(4): 520-531.
- Azhar AS, AlShammasi ZH and Higgi RE (2016) The impact of congenital heart diseases on the quality of life of patients and their families in Saudi Arabia: Biological, psychological, and social dimensions. *Saudi medical journal* 37(4): 392.
- Barkhuizen M, Abella R, Vles JH, et al. (2021) Antenatal and perioperative mechanisms of global neurological injury in congenital heart disease. *Pediatric Cardiology* 42(1): 1-18.
- Bhatt AB, Foster E, Kuehl K, et al. (2015) Congenital heart disease in the older adult: a scientific statement from the American Heart Association. *Circulation* 131(21): 1884–1931.
- Biber S, Andonian C, Beckmann J, et al. (2019) Current research status on the psychological situation of parents of children with congenital heart disease. *Cardiovascular diagnosis and therapy* 9(Suppl 2): S369.
- Bichard E, McKeever S, Bench S, et al. (2022) Experiences of siblings of children with congenital heart disease during Coronavirus disease 2019; A qualitative interview study. *Journal of Pediatric Nursing* 63: 96-101.
- Bourke B (2014) Positionality: Reflecting on the research process. *The qualitative report* 19(33): 1-9.
- Cahill T, Jewell P, Denne L, et al. (2019) Contemporary epidemiology of infective endocarditis in patients with congenital heart disease: a UK prospective study. *American heart journal* 215: 70-77.
- Caris EC, Dempster N, Wernovsky G, et al. (2018) Perception scores of siblings and parents of children with hypoplastic left heart syndrome. *Congenital heart disease* 13(4): 528-532.
- Christie D and Viner R (2005) Adolescent development. *Bmj* 330(7486): 301-304.
- De Man, M. A., Segers, E. W., Schappin, R., et al. (2021) Parental experiences of their infant's hospital admission undergoing cardiac surgery: a systematic review. *Acta Paediatrica* 110(6): 1730-1740.
- Ernst G, Klein L, Kowalewski K, et al. (2020) Ich bin auch noch da—Schulung für Geschwister von chronisch kranken oder behinderten Kindern. *Klinische Pädiatrie* 232(06): 300-306.
- Feriante J, Shayani A, Lauer E, et al. (2022) Sibling Support Program: A Novel Peer Support Intervention for Parents, Caregivers and Siblings of Youth Experiencing Mental Illness. *Healthcare*. MDPI, 908.
- Gramszlo C, Karpyn A, Christofferson J, et al. (2020) Supporting parenting during infant hospitalisation for CHD. *Cardiology in the Young* 30(10): 1422–1428.
- Hammarberg K, Kirkman M and de Lacey S (2016) Qualitative research methods: when to use them and how to judge them. *Human reproduction* 31(3): 498-501.



- Hartling L, Milne A, Tjosvold L, et al. (2014) A systematic review of interventions to support siblings of children with chronic illness or disability. *Journal of paediatrics and child health* 50(10): E26-E38.
- Havermans T, Croock ID, Vercruyse T, et al. (2015) Belgian siblings of children with a chronic illness: Is their quality of life different from their peers? *Journal of Child Health Care* 19(2): 154-166.
- Holderman JC (2017) Their New Normal: How We Can Help Siblings Thrive in the World of Pediatric Mortality. *Pathways: Stanford Journal of Public Health (SJPH)* 6: 51-57.
- Hövels-Gürich H and Latal B (2021) Positionspapier: Forderung eines umfassenden neuropsychologischen Screenings für Kinder und Jugendliche mit angeborenem Herzfehler (AHF). *The Thoracic and Cardiovascular Surgeon* 69(S 02): DGPK-eP22.
- Kendall E, Maujean A, Pepping CA, et al. (2014) Hypotheses about the psychological benefits of horses. *Explore* 10(2): 81-87.
- Kessler RC and Wang PS (2008) The descriptive epidemiology of commonly occurring mental disorders in the United States. *Annual review of public health* 29(1): 115-129.
- Kinderhospizdienste A (2021) FALLBERICHT 57.1 Ambulante Versorgungs-möglichkeiten bei (noch) fehlender Diagnose. *Fälle Palliativmedizin: Patientenzentrierte, multiprofessionelle Empfehlungen aus der Praxis* 420.
- Kushki A, Drumm E, Pla Mobarak M, et al. (2013) Investigating the autonomic nervous system response to anxiety in children with autism spectrum disorders. *PLoS one* 8(4): e59730.
- Liu Y, Chen S, Zühlke L, et al. (2019) Global birth prevalence of congenital heart defects 1970–2017: updated systematic review and meta-analysis of 260 studies. *International journal of epidemiology* 48(2): 455-463.
- Long KA, Marsland AL, Wright A, et al. (2015) Creating a tenuous balance: Siblings' experience of a brother's or sister's childhood cancer diagnosis. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, 32(1): 21-31.
- Mandalenakis Z, Giang KW, Eriksson P, et al. (2020) Survival in children with congenital heart disease: have we reached a peak at 97%?. *Journal of the American Heart Association*. 9(22): p.e017704.
- Mayring P and Fenzl T (2019) *Qualitative Inhaltsanalyse*. Springer.
- McQuillen PS, Barkovich AJ, Hamrick SE, et al. (2007) Temporal and anatomic risk profile of brain injury with neonatal repair of congenital heart defects. *Stroke* 38(2): 736-741.
- Medeiros C, Gouveia MJ, Canavarro MC, et al. (2016) The indirect effect of the mindful parenting of mothers and fathers on the child's perceived well-being through the child's attachment to parents. *Mindfulness* 7(4): 916-927.
- Menke EM (1987) The impact of a child's chronic illness on school-aged siblings. *Children's Health Care* 15(3): 132-140.
- Moon Y, Jung JW and Lee S (2021) Sibling relationships of adolescents with congenital heart disease. *International Journal of Environmental Research and Public Health* 18(5): 2698.

- Moser A and Korstjens I (2018) Series: Practical guidance to qualitative research. Part 3: Sampling, data collection and analysis. *European journal of general practice* 24(1): 9-18.
- Niinomi K and Fukui M (2022) Children's psychosocial and behavioural consequences during their siblings' hospitalisation: A qualitative content analysis from caregivers' perspectives. *Journal of Clinical Nursing* 31(15-16): 2219–2226.
- Oerter R and Dreher E (2008) *Jugendalter*. Oerter R and Montada L. *Entwicklungspsychologie*. 5. Aufl. Beltz. Weinheim.
- Parker R, Houghton S, Bichard E, et al. (2020) Impact of congenital heart disease on siblings: A review. *Journal of Child Health Care* 24(2): 297-316.
- RED Medical Systems GmbH. (2021) *RED connect – Videosprechstunde*. RED Medical Systems GmbH, München, Germany, 2021. <https://www.redmedical.de/red-connect-videosprechstunde/>
- Redshaw S and Wilson V (2012) Sibling involvement in childhood chronic heart disease through a bead program. *Journal of Child Health Care* 16(1): 53-61.
- Regmi K, Naidoo J and Pilkington P (2010) Understanding the processes of translation and transliteration in qualitative research. *International Journal of Qualitative Methods* 9(1): 16-26.
- Schamong AS, Liebermann-Jordanidis H, Brockmeier K, et al. (2021). Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review. *Journal of Child Health Care*, 13674935211012933
- Su Z, Zhang Y, Cai X, et al. (2023) Improving long-term care and outcomes of congenital heart disease: fulfilling the promise of a healthy life. *The Lancet Child & Adolescent Health*.
- Thomas R, Pesut B, Siden H. ,et al. (2023). Developing competencies for volunteer navigators to support caregivers of children living with medical complexity: a mixed-method e-Delphi study. *Palliative Care and Social Practice*, 17, 26323524231209060.
- Tong A, Sainsbury P and Craig J (2007) Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): a 32-item checklist for interviews and focus groups. *International journal for quality in health care* 19(6): 349-357.
- van der Mheen M, Meentken MG, van Beynum IM, et al. (2019) CHIP-Family intervention to improve the psychosocial well-being of young children with congenital heart disease and their families: results of a randomised controlled trial. *Cardiology in the Young* 29(9): 1172–1182.
- Vella Gera J, Martin GM and Camilleri Zahra AJ (2021) An insight into the lives of young siblings of disabled children in Malta. *Disability & Society* 36(1): 58-80.
- VERBI GmbH (2020) *Qualitative Datenanalyse mit MAXQDA; Software für Windows & macOS* (2020) [MAXQDA] VERBI GmbH. Berlin, Germany. <https://www.maxqda.com/de/>
- Warnes CA, Liberthson R, Danielson GK, et al. (2001) Task force 1: the changing profile of congenital heart disease in adult life. *Journal of the American College of Cardiology* 37(5): 1170–1175.

- Wawrzynski SE, Schaefer MR, Schvaneveldt N, et al. (2021) Social support and siblings of children with cancer: A scoping review. *Psycho-Oncology* 30(8): 1232–1245.
- Werner EE (2013) What can we learn about resilience from large-scale longitudinal studies? *Handbook of resilience in children*. Springer, pp.87-102.
- Witzel A and Reiter H (2012) *The problem-centred interview*. Sage.
- Woolf-King SE, Anger A, Arnold EA, et al. (2017) Mental health among parents of children with critical congenital heart defects: a systematic review. *Journal of the American Heart Association* 6(2): e004862.

**Beitrag II: Supplementary material****Supplementary Table B1***The COREQ checklist: Consolidated criteria for reporting qualitative research*

	Item No.	Guide Question/Description	Reported on Section/ Page No.
<b>Domain 1: Research team and reflexivity</b>			
<i>Personal characteristics</i>			
Interviewer/facilitator	1	Which author/s conducted the interview or focus group?	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
Credentials	2	What were the researchers' credentials? E.g., PhD, MD	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
<i>Authors* information</i>			
Occupation	3	What was their occupation at the time of the study	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
Gender	4	Was the researcher male or female?	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
Experience and training	5	What experience or training did the researcher have?	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
<i>Relationship with participants</i>			
Relationship established	6	Was a relationship established prior to study commencement?	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
<i>Relationship with participants</i>			
Participant knowledge of the interviewer	7	What did the participants know about the researcher? <i>e.g., personal goals, reasons for doing the research</i>	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
Interviewer characteristics	8	What characteristics were reported about the interviewer/facilitator? <i>e.g., Bias, assumptions, reasons and interests in the research topic</i>	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
<b>Domain 2: study design</b>			
<i>Theoretical framework</i>			
Methodological orientation and Theory	9	What methodological orientation was stated to underpin the study? <i>e.g., grounded theory, discourse analysis, ethnography, phenomenology, content analysis</i>	Methods/Data Analysis, P 4
Sampling	10	How were participants selected? <i>e.g., purposive, convenience, consecutive, snowball</i>	Methods/Participant Recruitment, P 3
Method of approach	11	How were participants approached? <i>e.g., face-to-face, telephone, mail, email</i>	Methods/Participant Recruitment & Implementation of the Interviews, P 3
Sample size	12	How many participants were in the study?	Findings, P 5
Non-participation	13	How many people refused to participate or dropped out? Reasons?	Findings, P 5
<i>Setting</i>			
Setting of data collection	14	Where was the data collected? <i>e.g., home, clinic, workplace</i>	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
Presence of non-participants	15	Was anyone else present besides the participants and researchers?	Methods/Participant Recruitment & Implementation of the Interviews, P 3
Description of sample	16	What are the important characteristics of the sample? <i>e.g., demographic data, date</i>	Findings & Table 1, Findings, P 5
<i>Data collection</i>			
Interview guide	17	Were questions, prompts, guides provided by the authors? Was it pilot tested?	Methods/ Short Questionnaires, Interview Guidelines, and

			Observational Sheet & Data Analysis, P 4/5
Repeat interviews	18	Were repeat interviews carried out? If yes, how many?	N/A
Audio/visual recording	19	Did the research use audio or visual recording to collect the data?	Methods/Implementation of the Interviews, P 3
Field notes	20	Were field notes made during and/or after the interview or focus group?	Methods/ Short Questionnaires, Interview Guidelines, and Observational Sheet, P 4
Duration	21	What was the duration of the interviews or focus groups	Findings, P 5
Data saturation	22	Was data saturation discussed?	Methods/Data analysis, P 4/5
Transcripts returned	23	Were transcripts returned to participants for comment and/or correction?	Findings, P 5
Domain 3: Analysis and findings			
<i>Data analysis</i>			
Number of data coders	24	How many data coders coded the data?	Methods/Data analysis, P 4/5
Description of the coding tree	25	Did authors provide a description of the coding tree?	Findings/Category System & Table 2, P 5/6
Derivation of themes	26	Were themes identified in advance or derived from the data?	Methods/ Short Questionnaires, Interview Guidelines, and Observational Sheet & Data Analysis, P 4/5
Software	27	What software, if applicable, was used to manage the data?	Methods/Data analysis, P 4
Participant checking	28	Did participants provide feedback on the findings?	N/A
<i>Reporting</i>			
Quotations presented	29	Were participant quotations presented to illustrate the themes/findings? Was each quotation identified?	Findings/All Subheadings except contextual conditions, P 5-8
Data and findings consistent	30	Was there consistency between the data presented and the findings?	Findings/All Subheadings, P 5-9
Clarity of major themes	31	Were major themes clearly presented in the findings?	Findings/All Subheadings, P 5-9
Clarity of minor themes	32	Is there a description of diverse cases or discussion of minor themes?	Findings/All Subheadings, P 5-9

Note: Adapted following Tong et al., 2007.

**Supplementary Table B2***Self-developed interview guideline*


---

Aims (in italics) and guiding questions (with bullets) for the interviews with siblings

---

*What is the distress of siblings of children with CHD? What factors affect their psychosocial well-being and QoL?*

- How does your sister's or brother's CHD burden you?
- What concerns do you have about your sister's or brother's CHD?
- What do you want to talk about regarding your sister's or brother's CHD at home? And what do you not want to talk about? Why don't you want to talk about it?
- What helps you to cope better with your sister's or brother's CHD?
- What makes it hard for you to deal with your sister's or brother's CHD?
- What impact does your sister's or brother's CHD have on you and your family? (If the answer is one-sided in a negative way, ask: In your opinion, are there any positive effects?)

*What needs do siblings of children with CHD have regarding an intervention aimed at improving their psychosocial well-being and QoL?*

- Would you be interested in participating in a training to better cope with your sister's or brother's CHD?
  - What would be important reasons for you to participate in such a training?
  - How should such a training look like? Which topics should be addressed? How long should the training last (in total, per session)?
  - How should the training be offered (individual, group training/workshop, online training, weekend trip for siblings, etc.)? If group training preferred: with how many people could you imagine participating in such a training? Would you prefer to participate alone or together with your siblings and/or parents?
- 

Aims (in italics) and guiding questions (with bullets) for the interviews with parents

---

*What is the distress of siblings of children with CHD? What factors affect their well-being and QoL?*

- In your opinion, how does the CHD of your child affect the healthy sibling?
  - In your opinion, what concerns does the healthy sibling have because of her or his sister's or brother's heart CHD?
  - In your opinion, what does the healthy sibling want to talk about regarding her or his sister's or brother's CHD at home? And what do you think she or he would not like to talk about? Why do you think she or he does not want to talk about it?
  - In your opinion, what makes it easier for the healthy sibling to deal with her or his sister's or brother's CHD?
  - In your opinion, what makes it difficult for the healthy sibling to deal with her or his sister's or brother's CHD?
  - In your opinion, what impact does your child's heart CHD have on your family in the eyes of the healthy sibling? (If the answer is one-sided in a negative way, ask: In your opinion, are there also positive effects?)
- 

*What needs do siblings of children with CHD have regarding an intervention aimed at improving their well-being and QoL?*

- Could you imagine your healthy sibling participating in a training that could support her or him to cope better with her or his sibling's CHD? Would you yourself be interested in participating in such a training with exercises, such as explanations regarding CHD and the associated feelings of siblings, to support the healthy sibling to cope better with her or his sibling's CHD?
  - What do you think would be important reasons to participate in such a training for your healthy child? What would be important reasons for you to participate in such a training?
  - How should such a training look like? Which topics should be addressed? How long should the training last (in total, per session)?
  - How should the training be offered (individual, group training/workshop, online training, weekend trip for siblings, etc.)? If group training preferred: with how many people could your child probably imagine participating in such a training? Would she or he probably prefer to participate alone or together with her or his siblings and parents?
- 

*Note:* CHD: congenital heart disease, QoL = quality of life.

**Supplementary Table B3**

*Self-developed observational sheet*

---

*Participant-code*

---

*Date*

---

*Interviewer's name*

---

*Posture:*

*(Relaxed body posture signaling potential openness and interest/tense or defensive body posture indicating potential nervousness and excitement)*

---

*Gestures & facial expressions:*

*(Affect diminished/flattened, appropriate, heightened)*

---

*Participants behavior/interpretation ideas:*

*(Behavior indicating potential nervousness or excitement such as chair tilting, finger nibbling)*

---

*Special occurrences*

---

## Supplementary Document B1

### Information for siblings about the participation in the study

1



**UNIKLINIK  
KÖLN**

Abteilung für  
Medizinische  
Psychologie

**Commissioning and overall responsibility for the study lie with:  
Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology of the University of Cologne  
Kerpener Str. 62  
D-50937 Köln**

**Alice Schamong, M.Sc.**  
+49 221 478-32674; alice.schamong@uk-koeln.de

**Prof. Dr. Konrad Brockmeier**  
+49 221 478-32514 (secretary's office); konrad.brockmeier@uk-koeln.de

**Medical Psychology | Neuropsychology and Gender Studies  
Faculty of Medicine and University Hospital Cologne of the University of Cologne  
Kerpener Str. 62  
D-50937 Köln**

**Prof. Dr. Elke Kalbe**  
+49 221 478-6669 (secretary's office); elke.kalbe@uk-koeln.de

#### **Information for siblings about the participation in the study**

**A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease**

Dear participants,

We are delighted that you are interested in our interview study on the stresses and support needs of siblings of children with congenital heart defects and that you would like to support us by taking part. As part of our study, we want to talk about the concerns and burdens of siblings of children with congenital heart defects and find out whether there are influences that have either a beneficial or detrimental effect on their well-being and quality of life. We also want to find out about their needs for support, e.g. in the form of training.

Participation in this study is of course voluntary. You will therefore only be included in this study if you give your consent. If you are under the age of 18, written consent must be signed by your parents. However, this is only possible if you have given your express consent in advance after receiving detailed



verbal and written information. If you do not wish to participate in the study or wish to withdraw your consent at a later date, you will not suffer any disadvantages as a result.

In the following, we would like to inform you about the background, the objectives and the course of our study and explain why your participation in the study is important. We ask you to read this information carefully and then decide whether you would like to take part in this study. You will, of course, be given sufficient time to consider your decision.

#### **The situation of siblings of children with congenital heart defects**

Until now, little attention has been paid in research to the siblings of children with congenital heart defects. A new review of research on this topic has now revealed that around a third of siblings experience restrictions in their well-being and quality of life. In addition, the poor impact of the disease was highest for siblings of children with congenital heart defects, compared to siblings of children with other chronic diseases such as cancer or cystic fibrosis. Whether there are influences that are either beneficial or detrimental to the well-being and quality of life of the siblings could not be precisely determined. However, there are assumptions that certain characteristics such as the age of the siblings, the severity of the heart defect, the financial situation of the family, previous miscarriages or the loss of a sibling in the past have an effect on the feelings of the siblings. Also, many of the studies were more than 25 years old and medical treatment was not yet up to today's standards. In addition, only one training program was found in which siblings of children with congenital heart defects could also participate in order to better cope with their stress.

#### **Aim of the study**

One of the main aims of the interviews will therefore be to better understand the concerns and burdens of current siblings of children with congenital heart defects. We will also ask what influences you think increase or decrease your well-being and quality of life. Finally, we will discuss your needs for training aimed at improving your well-being and quality of life.

#### **Planned measures and course of the study**

Parents and siblings (10 to 21 years old) of children with congenital heart defects can participate in the interview study. You will be informed about the study both in person and in writing before the first examination appointment. If you meet the inclusion criteria and provide written, voluntary consent, you will be included in the study and we will make an appointment. For participants under the age of 18, written parental consent is required.

Before the interviews begin, you will be asked to complete a short questionnaire, which will take no more than 5 minutes and ask for a few personal details (e.g. age, illness of sibling). This information will help us to better understand, classify and compare the results based on the characteristics of the participants (e.g. older/younger children, mild/severe heart defects). As part of the interviews, we will ask siblings directly, but also interview the parents, who will provide information about the experience of their healthy children.

Thereafter, the actual interview begins, which can last up to 60 minutes. In the first part of the interview, we will ask about the stresses and worries associated with your sibling's heart defect and what influences you think increase or decrease your well-being and quality of life. We are also interested in whether the situation also brings good things, such as greater cohesion within the family. The second part of the interview will then focus on your wishes for a training program to help improve the well-being and quality of life of siblings of children with congenital heart defects. It could, for example, consist of exercises that take place individually, in groups or in self-training at home. Seminars or workshops, but also paper and pencil exercises or tasks on a PC, cell phone or tablet are conceivable. The provision of knowledge about the heart defect and how our heart works, as well as the type and aim of treatment, can also be part of the training. You could also be taught tips and tricks to help you cope better with the stress. At this point, we would like to ask you to help us gain as realistic an insight as possible.

We will record the interviews so that we can concentrate fully on the conversation and later evaluate the statements at our leisure. The recordings will be deleted immediately after the evaluation. The study was discussed and positively evaluated by the Ethics Committee of the Medical Faculty of the University of Cologne on July 12, 2021.

#### **Who can participate in the study?**

Persons can participate in this scientific study if their parents give their written consent to participate in the study on their behalf, if they have not yet reached the age of 18 and

- are between the ages of 10 and 21 and have a sibling with a congenital heart defect, as well as their parents (no age restriction)
- currently have a stable mood according to self-assessment
- whose native language is German, or who have a very good knowledge of German

Persons cannot participate,

- who are younger than 10 or older than 21 (siblings)

- suffer from an unstable mood according to their current self-assessment or are under severe emotional stress
- who have not submitted a written, informed declaration of consent from the participating persons or their legal guardian
- whose native language is not German, or who do not have sufficient knowledge of German

**Possible risks, exposures, side effects associated with participation**

Participation in the study is not associated with any medical risks. The interviews, especially questions about stressful experiences in the past and worries about the future, can lead to temporal and emotional stress. In order to ensure that no participants (parents or siblings) are included who are currently already under a great deal of stress and that possible stress is limited to the period of the interview itself, the participants are asked for a self-assessment of their current mood before being included in the study. Based on this assessment, only participants with a currently stable mood will be included, so that it can be assumed that the benefits of the study will be greater than the burdens.

In addition, you can withdraw your consent at any time and stop participation in the study without any disadvantages. If the interview does cause you distress, you can speak to the psychologist responsible for the study at any time.

**Potential benefits of participation**

The results of the qualitative interview study could help to broaden our understanding of concerns and needs and to design the most appropriate training/interventions for siblings of children with congenital heart defects. This can reduce their worries and stress and improve their well-being and quality of life. These improvements, such as an improvement in mood, could also have an impact on other members of the families. In addition, each study raises awareness of this important topic, which has been neglected in research to date. In the best-case scenario, the study even triggers further research in this area and helps parents and therapists to better empathize with the siblings' situation. In addition, the topics and questions discussed in the interview can make it easier to deal with stressful experiences, which can make life with a sibling's heart defect easier.

**Data processing and data protection**

As part of the study, the data including the personal details from the short questionnaire are pseudonymized. This means that they are recorded and passed on without mentioning names, but only coded, e.g. by a number. Subsequent assignment of the study data to specific persons is only possible via a list stored at the study center. This list remains in the study center and is not passed on

and is destroyed immediately after the end of the study. There are no conceivable situations in which decoding should take place. The data collected will be recorded and statistically analyzed by an electronic data system. At the end of the study, all data is immediately anonymized and stored and archived in a secure system for a period of 10 years. Anonymized means that the allocation code is deleted and the data is modified in such a way that it cannot be assigned to a person in any way. Your data will then be deleted, unless longer storage is required by law, and the data collected will be processed under the responsibility of the study management and the study coordinators (Alice Schamong, M.Sc., Prof. Dr. Konrad Brockmeier and Prof. Dr. Elke Kalbe).

You have the right to information and access to personal data that is collected, processed or transferred to third parties as part of the study. If you discover any errors in your data, you have the right to have them corrected. You also have the right to receive a copy of this data free of charge and to request the deletion of the data stored about you. The data will be treated confidentially at all times. The pseudonymized data will be made available to the Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology of the University Hospital of Cologne, as well as to the cooperating Medical Psychology | Neuropsychology and Gender Studies of the Medical Faculty and University Hospital of the University of Cologne. Scientific publications of results are exclusively anonymous, i.e. in a form that does not allow any conclusions to be drawn about your person.

**Are there risks associated with data processing?**

Any collection, storage, use and transmission of data involves confidentiality risks (e.g. the possibility of identifying the person concerned). These risks cannot be completely ruled out and increase the more data can be linked together. However, the study management assures you that it will do everything possible to protect your privacy according to the state of the art and will only pass on data to bodies that can demonstrate a suitable data protection concept. There are no medical risks associated with data processing.

**Can I withdraw my consent?**

You can withdraw your consent in writing or verbally at any time without giving reasons and without any disadvantage to you. If you withdraw your consent, no further data will be collected. However, the data processing carried out up to the point of withdrawal remains lawful. In the event of revocation, all data will be deleted immediately or completely anonymized.

**What other rights do I have in relation to data protection?**

If you have any concerns regarding data processing and compliance with data protection requirements, you should primarily contact the persons responsible for studies (Alice Schamong, M.Sc., Prof. Dr. Konrad Brockmeier, Prof. Dr. Elke Kalbe). However, you can also contact the following data protection officers:

Data Protection Officer of the University Hospital Cologne:

Dominik Zier

Kerpener Str. 62 · 50937 Cologne

Telephone: +49 221 478-88008 · E-mail: datenschutz@uk-koeln.de

Data Protection Officer of the University of Cologne:

Gesa Diekmann

Phone: +49 221 470-6370 · E-mail: dsb@verw.uni-koeln.de

Furthermore, you have the right to lodge a complaint with the data protection supervisory authority of the state of NRW in the event of specific suspected violations of the GDPR:

State Commissioner for Data Protection and Freedom of Information North Rhine-Westphalia

Ms. Helga Block

P.O. Box 200444 · 40102 Düsseldorf

Phone: +49 211 38424-0 · E-mail: poststelle@ldi.nrw.de

**Subject insurance**

As there are neither study-related health risks nor study-related commuting, no volunteer insurance or commuting accident insurance was taken out for the study.

**Possible reasons for premature termination of the study**

The interview can be terminated prematurely for several reasons: For example, if the study participants experience unexpectedly severe stress as a result of participating in the interview, it can be terminated immediately and stabilization can be carried out by a psychologist. The identification of any personal doubts about the benefits of the interview study can also lead to the voluntary premature termination of the interview. If participants experience unexpectedly high levels of stress as a result of participating in the study, we will terminate the study prematurely.

We will inform you immediately if there are any changes in the course of the study.

**Reimbursement of expenses and reimbursement of costs**

You will not be reimbursed for your participation in the study. However, you will not incur any costs by participating in the study.

**Do you have any further questions?**

If you have any further questions about the study procedure, data protection, your rights, etc., please contact Alice Schamong, M.Sc., Prof. Dr. Konrad Brockmeier or Prof. Dr. Elke Kalbe at any time.

Alice Schamong, M.Sc.  
Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology  
University Hospital Cologne  
Kerpenerstr. 62  
50937 Cologne  
Phone: 0221/478-3674  
E-mail: [alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de)

Prof. Dr. Konrad Brockmeier  
Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology  
University Hospital Cologne  
Kerpenerstr. 62  
50937 Cologne  
Telephone: 0221/478-32514  
Fax: 0221/478-32515  
E-mail: [konrad.brockmeier@uk-koeln.de](mailto:konrad.brockmeier@uk-koeln.de)

Prof. Dr. Elke Kalbe  
Medical Psychology | Neuropsychology and Gender Studies  
University Hospital Cologne  
Kerpenerstr. 62  
50937 Cologne  
Phone: 0221 478-6669 (secretary's office)  
Fax: 0221 478-3420  
E-mail: [elke.kalbe@uk-koeln.de](mailto:elke.kalbe@uk-koeln.de)

**Declaration of consent**

Name: \_\_\_\_\_

Vorname: \_\_\_\_\_

Date of birth \_\_\_\_\_

- I have received the information and have been informed about the nature, significance, scope and risks of the planned project. I have been given sufficient opportunity to clarify all open questions. I have the right to request further information about the study at any time.
- I voluntarily agree to participate in the study.
- I have the right to withdraw from the study at any time without giving reasons and without any disadvantages for my medical treatment.

**Declaration of consent to data protection:**

In this scientific study, personal data and medical findings about you will be collected. The storage, transfer and evaluation of this data is carried out in accordance with legal regulations and requires the following voluntary consent before participation in the study:

1. I agree that data collected on questionnaires and electronic data carriers as part of this study may be recorded in pseudonymized form (without mentioning my name) and passed on to the client of the study/study director/the person with overall responsibility for the study.
  2. Furthermore, I agree that an authorized representative of the client/study director, who is bound to secrecy, may inspect my personal data held by the study doctor, insofar as this is necessary for the review of the study. For these measures, I release the study physician from the obligation of medical confidentiality.
  3. I agree that my data will be stored in accordance with scientific standards for up to 10 years after completion or discontinuation of the study. After that, my personal data will be deleted or anonymized.
  4. I have been informed that I can terminate my participation in the study at any time. In this case, data already collected will be deleted or completely anonymized.
  - 5 I have taken note of the information on data protection and consent to the data processing.
- I have received the complete subject information for the study as well as a signed copy of this declaration of consent.

---

First and last name of the study participant (in block capitals)

---

Place and date (to be filled in personally)

---

Signature of the study participant/legal guardian, if younger than 18 years of age

I have conducted the informed consent interview and obtained the consent of the study participant.

---

First and last name of the interviewer (in block letters)

---

Place and date (to be filled in personally)



**Supplementary Document B2**

*Self-developed short questionnaire for siblings*

1



**UNIKLINIK  
KÖLN**

Abteilung für  
Medizinische  
Psychologie

**Commissioning and overall responsibility for the study lie with:  
Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology of the University of Cologne  
Kerpener Str. 62  
D-50937 Köln**

**Alice Schamong, M.Sc.**  
+49 221 478-32674; alice.schamong@uk-koeln.de

**Prof. Dr. Konrad Brockmeier**  
+49 221 478-32514 (secretary's office); konrad.brockmeier@uk-koeln.de

**Medical Psychology | Neuropsychology and Gender Studies  
Faculty of Medicine and University Hospital Cologne of the University of Cologne  
Kerpener Str. 62  
D-50937 Köln**

**Prof. Dr. Elke Kalbe**  
+49 221 478-6669 (secretary's office); elke.kalbe@uk-koeln.de

**Short questionnaire for siblings**

**A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease**

**Questions about the person/sibling**

1. Age: \_\_\_\_ years

2. Sex:  male  female  non-binary

3., 4. & 5. Please fill in only if applicable:

3. Current school attendance:

- comprehensive school
- secondary school
- junior school
- high school
- others, namely: \_\_\_\_\_

4a. Highest educational degree:

- secondary school diploma
- junior high school diploma
- vocational baccalaureate
- high school diploma
- others, namely: \_\_\_\_\_

4b. Highest occupational qualification achieved:

- completed vocational training
- completed university degree
- no occupational qualification
- others, namely: \_\_\_\_\_

5. Current job status:

- working
- employed
- freelance
- not gainfully employed
- others, namely: \_\_\_\_\_

6. Perceived support from the social network (family, friends, colleagues, etc.):

- very good
- good
- sufficient
- insufficient

*Questions about your sibling*

1. My sibling with the congenital heart disease is \_\_\_\_ years old

2. My sibling is affected by the following congenital heart disease....

\_\_\_\_\_

3. You can see that my sibling has a congenital heart disease

- Yes
- No

4. If so, how can you tell?

\_\_\_\_\_

Thank you very much for your cooperation!

**Supplementary Document B3**

*Self-developed short questionnaire for parents*

1



**UNIKLINIK  
KÖLN**

Abteilung für  
Medizinische  
Psychologie

**Commissioning and overall responsibility for the study lie with:  
Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology of the University of Cologne  
Kerpener Str. 62  
D-50937 Köln**

**Alice Schamong, M.Sc.**  
+49 221 478-32674; alice.schamong@uk-koeln.de

**Prof. Dr. Konrad Brockmeier**  
+49 221 478-32514 (secretary's office); konrad.brockmeier@uk-koeln.de

**Medical Psychology | Neuropsychology and Gender Studies  
Faculty of Medicine and University Hospital Cologne of the University of Cologne  
Kerpener Str. 62  
D-50937 Köln**

**Prof. Dr. Elke Kalbe**  
+49 221 478-6669 (secretary's office); elke.kalbe@uk-koeln.de

**Short questionnaire for parents**

**A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences  
and support needs of siblings of children with congenital heart disease**

**Questions about the person/parent**

1. Age: \_\_\_\_\_ years
2. Sex:  male  female  non-binary
3. Highest educational degree:  
 secondary school diploma  
 junior high school diploma  
 vocational baccalaureate  
 high school diploma  
 others, namely: \_\_\_\_\_
4. Highest occupational qualification achieved:  
 completed vocational training  
 completed university degree

- no occupational qualification
- others, namely: \_\_\_\_\_

5. Current job status:

- working
- employed
- freelance
- not gainfully employed
- others, namely: \_\_\_\_\_

Family annual income gross in €: \_\_\_\_\_

6. Marital Status:

- married
- cohabiting
- single parent
- others, namely: \_\_\_\_\_

7. Perceived support from the social network (family, friends, colleagues, etc.):

- very good
- good
- sufficient
- insufficient

8. Number of children living in the household:

\_\_\_\_\_

*Questions about your children*

1. My child with the congenital heart disease is \_\_\_\_ years old

2. The healthy sibling is \_\_\_\_ years old

3. My child is affected by the following congenital heart disease....

\_\_\_\_\_

4. You can see that my child has a congenital heart disease

- Yes
- No

5. If so, how can you tell?

\_\_\_\_\_

6. I have already lost an unborn child/child once?

- Yes

3

No

7. If so...

Loss of an unborn child

Loss of a child already born

Thank you very much for your cooperation!

**Beitrag II: References of supplementary material**

Tong, A., Sainsbury, P., and Craig, J. (2007). Consolidated criteria for reporting qualitative research (COREQ): a 32-item checklist for interviews and focus groups. *International journal for quality in health care* 19(6): 349-357.

**Anhang C: Beitrag III: Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease**

**Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease**

Alice S Schamong<sup>1</sup>, Konrad Brockmeier<sup>1</sup>, Ann-Kristin Folkerts<sup>2</sup>, Vanessa Pytel<sup>3</sup>, Birgit Träuble<sup>3</sup> and Elke Kalbe<sup>2</sup>

**Abstract**

Although siblings of children with congenital heart disease (CHD) face adverse experiences which negatively affect their quality of life, research on this topic is rare. Our online study, conducted from November 2022 to May 2023, aimed to assess the overall and domain-specific health-related quality of life (HRQoL), i.e., physical well-being, psychological well-being, autonomy and parents, social support and peers, and school environment) of siblings of children with CHD, compared to those of siblings of children with type 1 diabetes, and to identify predictors of the overall HRQoL of siblings of children with CHD. The final sample consisted of 165 siblings of children with CHD ( $n=84$ ) and type 1 diabetes ( $n=81$ ). The results showed that the overall and domain-specific HRQoL of siblings of children with CHD are significantly lower than those of siblings of children with type 1 diabetes. Furthermore, female siblings have lower HRQoL, as do the siblings of children with visible disease. Interventions should be developed to address these siblings' HRQoL. In the care process, especially female siblings and the siblings of children with visible conditions should be considered, because they are at increased risk of HRQoL impairments.

*Keywords:* Heart defects; congenital; siblings; child; health-related quality of life

---

<sup>1</sup> University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology, Germany

<sup>2</sup> University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology, Germany

<sup>3</sup> Department of Psychology, Faculty of Human Science, University of Cologne, Germany

Corresponding author:

Alice Schamong, Klinik und Poliklinik für Kinderkardiologie, Uniklinik Köln, Kerpener Straße 62, Köln 50937, Germany.

Email: [alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de)

## Introduction

Since more recent data is not yet available, estimated prevalence of congenital heart disease (CHD) in Germany is about 1% (Lindinger et al., 2010), and the number of complex CHD has grown significantly over the last decade (Pfitzer et al., 2017). Although siblings of children with CHD experience life changes that can negatively impact their academic performance, behavior, health (Parker et al., 2020) and social activities (Williams et al., 1993), research on this group remains scarce (Parker et al., 2020; Bichard et al., 2022; Schamong et al., 2021).

A systematic review found that in up to one-third of siblings of children with CHD, psychosocial well-being and quality of life (QoL) were impaired (Schamong et al., 2021). One study determined that siblings of children with CHD ( $n=21$ ), rated their QoL lower than siblings of children with other chronic conditions, such as cystic fibrosis and type 1 diabetes (Havermans et al., 2015). Another study revealed a decrease in caretaking activities for siblings among mothers of children with CHD compared to those of children with neurologic conditions, which could negatively influence these siblings' QoL (Williams et al., 1993).

Factors that have been reported to be associated with the impairment of the psychosocial well-being of siblings of children with CHD include higher sibling age, which was linked to worse disease adjustment among siblings (Caris et al., 2018). A higher position in birth order was found to be associated with elevated protective concerns towards siblings (Menke, 1987), and female sex was reported to be linked to greater involvement in caretaking activities (Williams et al., 1993). The visibility of children's conditions was correlated with the social withdrawal of their siblings (Lavigne and Ryan, 1979). Furthermore, a higher complexity of CHD was associated with psychosomatic disorders (Apley et al., 1967), anxiety, depression, anger, insecurity and jealousy (Wray and Maynard, 2005) among siblings, as well as with parental inattention (Janus and Goldberg, 1997) and limited family activities (Wray and Maynard, 2005).

Health-related quality of life (HRQoL) in adolescents –covering overall HRQoL and the subdomains physical well-being, psychological well-being, autonomy and relationship to parents, social support and peers, and school environment – is a concept that unites all the domains of psychosocial well-being and QoL relevant to adolescents in the context of chronic diseases (Ravens-Sieberer et al., 2014). To date, there has been no systematic evaluation of the overall and domain-specific HRQoL of a large sample of siblings of children with CHD, compared to siblings of children with other chronic diseases. Additionally, potential predictors of the overall HRQoL of siblings of children with CHD have not yet been analyzed. This data could be used to determine risk groups of siblings that could be in specific need of support and, therefore, should be carefully considered in the care process.



**Aim**

Based on the findings outlined above, this study aims to (i) investigate the overall and domain-specific HRQoL of a large sample of siblings of children with CHD in comparison to a sample of siblings of children with type 1 diabetes and (ii) determine predictors of the HRQoL of siblings of children with CHD. We hypothesized that (1) siblings of children with CHD have lower scores for overall HRQoL and all HRQoL subdomains than siblings of children with type 1 diabetes and (2) siblings' age, position in the birth order, sex and the visibility and severity of their siblings' conditions act as predictors of the lower overall HRQoL of siblings of children with CHD.

## Methods

The study protocol was registered in the German Clinical Trials Register (ID: DRKS00028874; <https://drks.de/search/de/trial/DRKS00028874>). The study was approved by the Ethics Committee of the Medical Faculty of the University of Cologne (no. 22-1281\_1) on October 20<sup>th</sup>. Reporting follows the guidelines for “Strengthening the Reporting of Observational Studies in Epidemiology” (STROBE; Von Elm et al., 2007), as presented within the supplementary material.

### Study design

#### *Inclusion and exclusion criteria*

The target population was German adolescents aged 14 to 18 years who had a sibling with CHD (target group) or type 1 diabetes (control group). The control group was chosen for methodological reasons, since type 1 diabetes – like CHD (Warnes, 2005) – is a chronic disease, has high prevalence and incidence rates, requires lifelong medical care, carries a risk of life-threatening complications and comes with a substantial psychological burden (DiMeglio et al., 2018).

The participants needed to have good German-language skills to ensure that they could understand the content of the questions. Since younger siblings (aged 10 to 13) seemed overwhelmed by the content of several questions in an interview study (Schamong et al., *submitted*) which provided the basis for the questions asked in this study, we decided to include participants aged 14 or older. The upper age limit of the questionnaire used to assess HRQoL, the KIDSCREEN-10 and -27 (Ravens-Sieberer et al., 2014), is 18 years, so 18 was the upper participants' age limit.

#### *Participant recruitment*

The participants were informed about the study via an informative text that described the study's aim, inclusion criteria and provided a link to the online questionnaire. The text was distributed via the social media sites of non-profit associations, such as Bundesverband Herzranke Kinder e.V. (The German Association for Children with CHD), Herzkind e.V. (The Heart Child Association) and Diabetes-kids.de, the largest German-language online forum for children and adolescents with type 1 diabetes, as well as via hospital mail distribution lists. Due to the highly specific sample, a convenience sampling-strategy was used. The informative text is shown within the supplementary material.

#### *Study procedure and online questionnaire*

The online questionnaire was set up with the help of the free survey tool SoSciSurvey (<https://www.soscisurvey.de/en/about>), which adheres to the strict requirements of German data privacy laws, and was available at the link [https://www.soscisurvey.de/LQ\\_Geschwister\\_HF\\_Diabetes/](https://www.soscisurvey.de/LQ_Geschwister_HF_Diabetes/) from 11/7/2022 to 5/27/2023.

At the start of the study, the participants received a detailed description of the project and information about data protection. Afterwards, the participants were asked for their written informed consent. If the participants were not yet 18 years old, their parents had to formally consent on their behalf. A code was then generated for each participant to enable eventual data withdrawal.

The participants then independently completed the questionnaire, which took about 20 minutes. First, HRQoL was assessed using established scales. Second, sociodemographic and disease-related data were obtained. At the end of the questionnaire, the participants were given the opportunity to enter suggestion and feedback in a free input field. The questionnaire is presented within the supplementary material.

### ***Assessment of sociodemographic and disease-related data***

Sociodemographic and disease-related data were assessed to obtain a profound description of the sample and to test hypothesis 2 (concerning the factors that predict HRQoL). The data assessed were sibling age, sex and position in the birth order (defined as being the younger or the older sibling); the age of the child with CHD/type 1 diabetes, their diagnosis (either type 1 diabetes or CHD) and, for CHD, the denomination of the diagnosis; and the visibility of their condition as rated by their sibling. Afterwards, we determined the complexity of the children's CHD (simple, moderate or complex) using Warnes et al.'s (2001) classification (see Tables 4–6).

### ***Assessment of HRQoL***

Overall HRQoL was measured using the KIDSCREEN-10 questionnaire through 10 items derived from the KIDSCREEN-27-item version. It has good to excellent internal consistency (Cronbach's  $\alpha=0.82$ ) and good test–retest reliability ( $r=0.73$ ;  $ICC=0.72$ ). All items are rated on 5-point Rasch scales with response options depending on the content of the questions.

Domain-specific HRQoL was measured using the KIDSCREEN-27 (Ravens-Sieberer et al., 2014), which contains 27 items surveying the following 5 dimensions of the HRQoL of children and adolescents aged 8 to 18 years: physical well-being, psychological well-being, autonomy and relationship to parents, relationship to peers and social support, as well as school. The internal consistency is good to excellent for all subdomains, ranging from 0.80 to 0.84; the test–retest reliability is good ( $r=0.66$ – $0.74$ ;  $ICC=0.65$ – $0.74$ ); and it has the same response format as the KIDSCREEN-10.

For both the KIDSCREEN-10 and -27, Rasch person parameter estimates are measured and transformed into z-values and then into T-values, based on data from the international survey sample from 12 European countries. The T-values have scale means of 50 and a standard deviation of 10, with higher scores indicating higher HRQoL for both instruments. European norm data regarding the means and standard deviation are available for KIDSCREEN-10 and -27. Scores exceeding half a standard deviation below/above the mean of the reference population can be judged as below/above average scores.

For our study, data from adolescents aged 12 to 18 years from 12 European countries were used as a reference. The range of values for the average HRQoL of this group in T-units is 42.72–51.41 for *overall HRQoL*, 42.26–51.41 for *physical well-being*, 42.51–52.09 for *psychological well-being*, 43.66–53.41 for *autonomy and parents*, 45.18–54.97 for *social support and peers*, and 43.97–53.12 for *school environment*. Values below/above these ranges are considered below/above average.

### **Sample size calculation**

The required sample sizes were calculated using G\*Power version 3.1.9.7 (Faul et al., 2007). Children with special healthcare needs have reported significantly lower overall and domain-specific HRQoL than healthy children, with small to moderate effect sizes (Ravens-Sieberer et al., 2014), and parents have rated the psychological impact of CHD on siblings' QoL almost as high as the impact on their children with CHD (Azhar et al., 2016). We therefore assumed a medium effect size as a minimum requirement for the sample calculation

Increasing age has been correlated to siblings' worse disease adjustment (Caris et al., 2018), and a higher position in the birth order has been associated with more protective concerns, both with medium effect sizes (Menke, 1987). Children and adolescents with more complex CHD have reported significantly lower HRQoL, with medium effect sizes (Varni et al., 2007). Related research on adolescents with cystic fibrosis found that female participants had significantly lower general HRQoL, with a medium effect size (Arrington-Sanders et al., 2006). Moreover, compared to community norms, children and adolescents with congenital melanocytic nevi (visible skin condition) scored significantly lower in the HRQoL subdomains psychosocial, emotional and social functioning, with medium effect sizes (Masnari et al., 2019). Thus, the choice of a medium effect size for regression analyses of HRQoL predictors was based on previous research.

### **Statistical analyses**

#### **Data analyses**

Results were considered statistically significant when  $p \leq .05$ . Tests for normal distribution of the data were disregarded, since the t-test is considered to be robust to violations of the normal distribution assumption in samples  $n > 30$  and has a higher statistical power than non-parametric approaches (Stone, 2010).

#### **Demographic and disease-related characteristics**

Means, standard deviations, numbers and percentages of the sample's demographic and disease-related characteristics were calculated. T-tests were applied to test for group differences in sibling age and age of the child with CHD/type 1 diabetes. Chi-square tests were applied to test for group differences in sibling position in birth order, sibling sex and visibility of condition.

***Testing hypothesis 1: comparing HRQoL***

Six t-tests ( $p < .05$ ) were performed to test hypothesis 1 by comparing the (1) overall HRQoL and each of the five HRQoL subdomains, (2) physical well-being, (3) psychological well-being, (4) autonomy and parents, (5) social support and peers and (6) school environment of siblings of children and adolescents with CHD and type 1 diabetes on a group level. Single t-tests were performed, since overall HRQoL (measured using KIDSCREEN-10) and each subdomain of HRQoL (measured using KIDSCREEN-27) represent conceptually independent scales (Ravens-Sieberer et al., 2014). In order to control the number of false positives for multiple hypothesis tests, for the five HRQoL subdomains, a Bonferroni correction =  $\alpha/5$  was applied by adjusting the significance level from  $p = .05$  to  $p = .01$ . Effects from 0.2 to  $< 0.5$  were categorized as small, effects from 0.5 to  $< 0.8$  were categorized as medium and effects  $\geq 0.8$  were categorized as large (Cohen, 1988).

***Testing hypothesis 2: predictors of HRQoL***

A confirmatory multiple linear regression with bootstrapping was performed to test hypothesis 2. Sibling age, sibling position in birth order, sibling sex, visibility of condition and CHD complexity were entered in the regression in one block as potential predictors of overall HRQoL measured using KIDSCREEN-10 (Ravens-Sieberer et al., 2014). The variable sibling sex was dummy coded, due to its three categorical dimensions female, male and non-binary. A bootstrapping approach was chosen because no linear relationship was assumed between age as an independent variable and overall HRQoL as a dependent variable (Davison and Hinkley, 2013).

## Results

### Required sample sizes to test hypotheses 1 and 2

In order to achieve 80% power for detecting a medium effect, with a significance criterion of  $\alpha=.05$ , the required sample size was  $n=51$  per group (i.e.,  $N=102$  in total) to allow for t-tests to be conducted to test group differences in HRQoL between the siblings of children with CHD and type 1 diabetes (and, thus, to test hypothesis 1). To achieve 80% power for detecting a medium effect, with a significance criterion of  $\alpha=.05$ , within a multiple regression model testing five predictors, the required sample size to test hypothesis 2 was  $N=92$ .

### Data collection

Data were collected from November 2022 to May 2023. A total of 170 siblings participated, of which 86 participants had siblings with CHD and 84 had siblings with type 1 diabetes. No missing data occurred, but five extreme outliers were excluded. Outlier exclusions are not associated with higher false-positive rates when applied across conditions, and median and interquartile range are relatively robust statistics (Jones, 2019). Following a conservative criterion, three participants from the type 1 diabetes group and two participants from the CHD group were excluded from further analysis due to extremely high values that far exceeded the interquartile range (André, 2022; Jones, 2019) regarding mean overall HRQoL and/or the HRQoL subdomains autonomy and relationship to parents, relationship to peers and school environment. The final sample consisted of 165 participants, of which 84 had siblings with CHD and 81 had siblings with type 1 diabetes.

### Disease-related demographic characteristics

T-tests revealed that the siblings of children with CHD and those of children with type 1 diabetes did not differ significantly in age ( $p>.05$ ), but the two groups differed significantly regarding the age of the children with CHD/type 1 diabetes, with  $-2.64$  years (95%-CI $[-3.90, -1.37]$ ) less for the CHD group,  $t(146.62)=-4.12$ ,  $p<.001$ . Chi-square tests were used to compare sibling sex, position in the birth order and visibility of disease between the two disease groups (CHD/type 1 diabetes). There was no difference in sex distribution and position in the birth order between the groups, but there were significant differences regarding visibility of disease,  $\chi^2(1)=8.93$ ,  $p=.003$ ,  $\phi=0.23$ , with a small effect size. A description of the sample's demographic and disease-related characteristics is displayed in Table 1.

**Table 1**

*Demographic and disease-related characteristics of the sample*

Demographic characteristics	CHD group n=84	Type 1 diabetes group n=81
Sibling age in years (Mean/SD)	15.70/1.35	15.79/1.36
Sibling age distribution (n/percent)		
14 years	21/25%	21/25.9%
15 years	19/22.6%	11/13.6%
16 years	18/21.4%	23/28.4%
17 years	16/19%	16/19.8%
18 years	10/11.9%	10/12.3%
Age of child with CHD/type 1 diabetes in years (Mean/SD)	11.52/4.83	14.16/3.27
Sibling sex (n/percent)		
Female	59/70.2%	50/61.07%
Male	24/28.6%	29/35.8%
Non-binary	1/1.2%	2/2.5%
Sibling position in birth order (n/percent)		
Younger	21/25%	29/35.8%
Older	63/75%	52/64.2%
Visibility of disease (n/percent)		
Visible	43/51.2%	23/28.4%
Not visible	41/48.8%	58/71.6%
CHD's complexity (n/percent)		
Simple	1/1.2%	Not applicable
Moderate	22/26.2%	
Complex	61/72.6%	

Note: CHD: congenital heart disease; visibility of disease following self-assessment; CHD's complexity following Warnes et al.'s (2001; see Table 4-6) classification.

**Hypothesis 1: t-tests comparing HRQoL**

Siblings of children with CHD showed overall and domain-specific HRQoL values that were below average compared to the reference population (half a standard deviation below the means of the reference group).

A t-test revealed that the mean *overall HRQoL* of the siblings in the CHD group was significantly lower than that of the siblings in the type 1 diabetes group, with  $-3.89$  (95%-CI[-5.16, -2.62]),  $t(163)=-6.06$ ,  $p<.001$ , with a large effect size (Cohen's  $d=0.85$ ).

In all five t-tests comparing the HRQoL subdomains, the siblings of children with CHD showed significantly lower HRQoL values than the siblings of children with type 1 diabetes. In the subdomain *physical well-being*, values were  $-3.02$  (95%-CI[-4.68, -1.36]),  $t(163)=-3.60$ ,  $p<.001$ , with a medium effect size (Cohen's  $d=0.54$ ); in the subdomain *psychological well-being*, they were  $-4.67$  (95%-CI[-

6.22, -3.12]),  $t(163)=-5.60$ ,  $p<.001$ , with a large effect size (Cohen’s  $d=0.84$ ); in the subdomain *autonomy and parents*, they were  $-2.37$  (95%-CI[-3.70, -1.04]),  $t(163)= -3.52$ ,  $p<.001$ , with a medium effect size (Cohen’s  $d=0.50$ ); in the subdomain *peers and perceived social support*, they were  $-3.89$  (95%-CI[-4.19, -1.51]),  $t(163)= -2.85$ ,  $p<.001$ , with a medium effect size (Cohen’s  $d=0.62$ ); and in the subdomain *school environment*, they were  $-4.08$  (95%-CI[-5.63, -2.53]),  $t(163)=-5.00$ ,  $p<.001$ , with a medium effect size (Cohen’s  $d=0.75$ ). Even when the five excluded participants were included, all the results were significant. The mean HRQoL values for the CHD and type 1 diabetes sibling-groups and European norm data for adolescents aged 12 to 18 years are displayed in Table 2.

**Table 2**

*Mean HRQoL-values of CHD- and type 1 diabetes-group and European norm data of adolescents aged 12 to 18 years*

HRQoL domains	CHD-group Siblings 14 – 18 years (Mean/SD)	Type 1 diabetes-group Siblings 14 – 18 years (Mean/SD)	European norm data Adolescents 12-18 years (Mean/SD)
1. Overall HRQoL, KIDSCREEN-10	38.33/4.33	42.22/3.91	47.21/8.98
2. Physical well-being, KIDSCREEN-27	39.81/6.14	42.84/4.51	46.83/9.15
3. Psychological well-being, KIDSCREEN-27	37.74/5.65	42.41/4.29	47.30/9.58
4. Autonomy & parents, KIDSCREEN-27	41.88/4.40	44.24/4.26	48.53/9.75
5. Social support & peers, KIDSCREEN-27	39.61/4.62	42.45/4.08	50.07/9.97
6. School environment, KIDSCREEN-27	39.92/5.01	44.00/5.08	48.54/9.15

Note: CHD: congenital heart disease; KIDSCREEN-10 & -27, Ravens-Sieberer et al., 2014.

**Hypothesis 2: regression analysis**

The fitted multiple linear regression model was as follows: overall HRQoL =  $45.676-0.133*(age)-0.414*(birth\ order)-2.637*(sex)-2.292*(visibility\ of\ disease)-1.251*(CHD\ complexity)$ . The overall regression was statistically significant,  $R^2=.22$ , adjusted  $R^2=.17$ ,  $F(5, 78)=4.47$ ,  $p=.001$ , indicating a moderate goodness-of-fit (Cohen, 2016). The model explains 17.3% of the variance in overall HRQoL. It was found that female sex ( $\beta=-.289$ ;  $p=.007$ ; 95%-CI[-4.50, -.71]) and visibility of disease ( $\beta=.266$ ;  $p=.014$ ; 95%-CI[.46, 4.21]) significantly predicted siblings’ overall HRQoL. Higher sibling age ( $\beta=-.042$ ;  $p=.694$ ; 95%-CI[-.84,.58]), a higher position in the birth order ( $\beta=-.042$ ;  $p=.694$ ; 95%-CI[-2.05, 1.56]) and greater CHD complexity ( $\beta=-.139$ ;  $p=.210$ ; 95%-CI[-3.03,.36]) did not significantly predict siblings’ overall HRQoL. The 95% bias-corrected and accelerated confidence intervals based on 1000 iterations did not include 0 for any significant predictors, so this result was robust. The overall HRQoL of female siblings is estimated to be 2.637 T-units lower than that of non-binary and male siblings of children

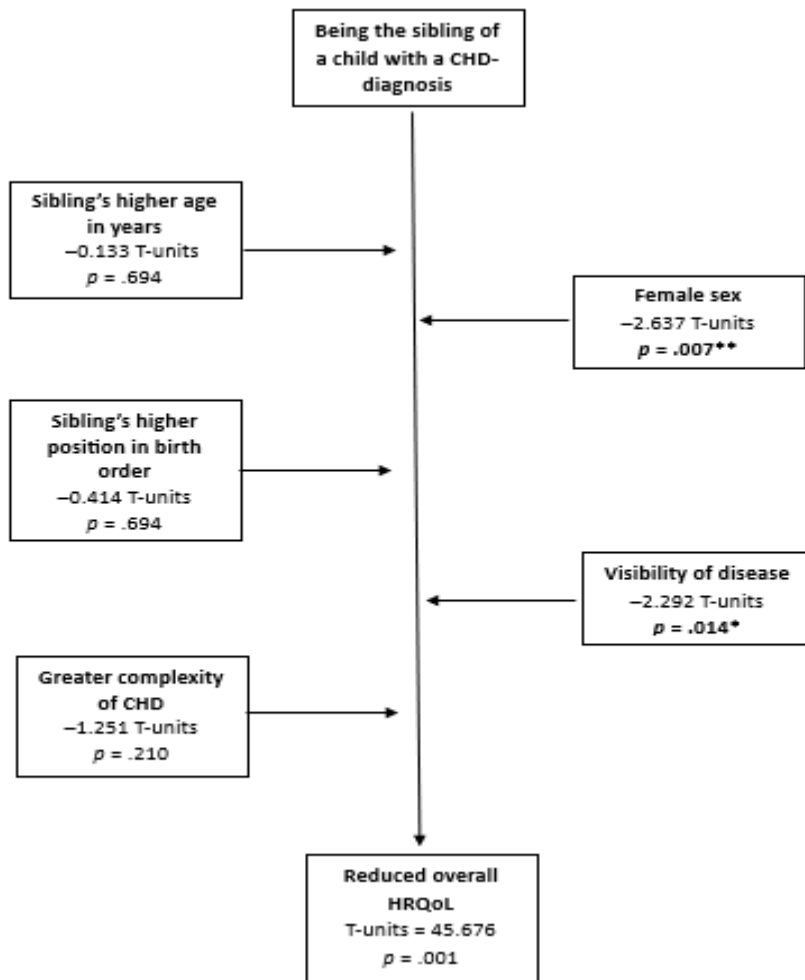


with CHD, and the overall HRQoL of siblings of children with visible CHD is estimated to be 2.292 T-units lower than that of siblings of children with invisible CHD.

Even when the two excluded participants from the CHD group were included, sibling sex and visibility of disease significantly predicted siblings' overall HRQoL. The role that each variable plays in the regression model is illustrated in Figure 1.

**Figure 1**

*Direct acyclic graph of the relationship between the variables included in the regression*



Note: CHD: congenital heart disease; HRQoL: health-related quality of life; visibility of disease following self-assessment; CHD's complexity following Warnes et al.'s (2001) classification including "simple", "moderate" and "complex".

## Discussion

Our main findings were that (1) siblings of children with CHD have lower scores for both overall HRQoL and all HRQoL subdomains tested than siblings of children with type 1 diabetes, confirming hypothesis 1, and that (2) female sex and visibility of condition act as predictors of lower HRQoL in siblings of children with CHD, only partly confirming hypothesis 2.

### The overall HRQoL of siblings

Our data indicate that siblings of children with CHD have significantly lower overall HRQoL than siblings of children with type 1 diabetes. This could be attributed to the unique concerns and burdens caused by CHD. A child with CHD usually needs to be hospitalized right after birth, and mostly interventions such as catheters or surgeries are needed (Sun et al., 2015). Developmental disorders can result from CHD and its treatment (Hövels-Gürich, 2016), and CHD is associated with lifelong uncontrollable risks of acute exacerbations due to pulmonary hypertension and scars from surgery which can lead to arrhythmias (Marelli et al., 2014). In moderate or complex CHD, multiple interventions and lifelong medical treatment are required (Ionescu-Ittu et al., 2010) because artificial tissues such as heart valves have to be replaced due to a lack of growth potential, immune rejection, somatic overgrowth, infection or calcification (Limongi et al., 2021; Shinoka et al., 1998; Matsuzaki et al., 2021). Another potential consequence of CHD treatment is disability or death due to oxygen deficiency during surgery (McQuillen et al., 2007). Anticipating or experiencing such events can emotionally overwhelm siblings, threatening their basic psychological need for security and control (Weems and Overstreet, 2008). This is likely why siblings who were interviewed as part of a qualitative study stated that they fear the hospitalization, deterioration in health, death, or exclusion and shaming of the child with CHD (Schamong et al., *submitted*). Reduced parental attention and parents' high levels of psychological stress (Biber et al., 2019), limited family activities and a loss of routine due to hospital stays and the temporary assumption of parental responsibilities further burden the siblings of children with CHD (Schamong et al., *submitted*; Williams et al., 1993) but not the siblings of children with type 1 diabetes. Type 1 diabetes rarely occurs before the age of 7 years, does not involve long or recurrent hospitalizations and can be treated with exogenous insulin out of hospital (DiMeglio et al., 2018). Subsequently, compared to siblings of children with type 1 diabetes, siblings of children with CHD are less likely to receive sufficient attention, support and care from their parents.

### The domain-specific HRQoL of siblings

The siblings of children with CHD scored significantly lower for all five HRQoL subdomains than the siblings of children with type 1 diabetes. As described above, this is most likely due to the profound and persistent concerns and burdens associated with CHD, which seem to have a particularly negative impact on siblings' psychological well-being, as reflected in the fact that this subdomain had the lowest

means of all five HRQoL subdomains. This result aligns with a study which found that parents rated the psychological impact of CHD on siblings' QoL almost as high as the impact on their children with CHD (Azhar et al., 2016) and the results of Schamong et al.'s (2021) review, which determined that siblings experienced anxiety, sadness, depression, worries, jealousy and feelings of rejection. Siblings also experienced health, school and behavioral problems (Schamong et al., 2021) which might explain the equally low average scores for the subdomains physical well-being, social support and peers, and school environment. Reduced parental attention and support, as well as limited family and social activities caused by parents' preoccupation with CHD treatment (Schamong et al., *submitted*), could explain these below-average values, since reduced attention to siblings' health issues, diminished encouragement of social activities and less support with schoolwork are likely consequences.

Among all five HRQoL subdomains, the siblings scored the highest average in the subdomain autonomy and parents, indicating that they are the least restricted in this aspect. This could be because the siblings have gained a certain degree of autonomy through their experiences with emotionally or physically absent parents (McBride-Chang and Chang, 1998). Additionally, the siblings might have benevolently perceived their parents' efforts to support them as best as they could, despite the difficult situation, and this might have had a positive effect on the parent-child relationship (Nabors et al., 2019).

### **Predictors of the overall HRQoL of siblings of children with CHD**

Female sex acts as a predictor of lower overall HRQoL of siblings of children with CHD. This could be because girls tend to internalize social pressures to conform to gender stereotypes by taking over care work (Perry and Pauletti, 2011) that is left undone, since at least one parent is kept busy caring for the child with CHD (Williams et al., 1993).

Certain complex forms of CHD cannot be treated curatively and lead to visible symptoms such as drumstick fingers, blue discoloration of the skin, bone deformities and decreased growth (Kyavar and Sadeghpour, 2014). These signs of disease progression could evoke substantial fear in these children's siblings (Tutus et al., 2023) and raise concerns that the children with CHD could be excluded or shamed by peers (Bagai and Erratt, 2019), which could explain why visibility of disease acts as a predictor of lower sibling HRQoL.

Regarding the other variables tested in the regression model, it is possible that the unbalanced ratios of sibling age, position in the birth order and CHD complexity biased the results. This issue is discussed in more detail within the Limitations.

### **Strengths**

To the best of our knowledge, this is the first study that (i) surveyed the overall and domain-specific HRQoL of a large group of siblings of children with CHD and compared their HRQoL to that of siblings of children with another chronic condition and (ii) investigated and identified predictors of the

overall HRQoL of siblings of children with CHD. Another strength is the study's high-quality standard, which meets the highest methodological requirements in the areas of study protocol, data collection and manuscript creation based on the STROBE-guidelines (Von Elm et al., 2007).

### **Limitations**

Some limitations must be considered when interpreting our results. The groups differed significantly in mean age of the child with CHD/type 1 diabetes (CHD group: 2.6 years less) and visibility of disease (CHD group: twice as high). However, since type 1 diabetes onset before the age of 7 is rare (DiMiglio et al., 2018), and CHD is present from birth (Sun et al., 2015), effects of long exposure to type 1 diabetes cannot be assumed. However, the fact that there were almost double the number of participants with visible disease in the CHD group may have biased the results towards lower HRQoL, especially since visible disease acts as a predictor of lower HRQoL in this group.

The unbalanced ratio of participants' age, sex and position in the birth order within both groups, and of CHD complexity in the CHD group, is notable and likely a consequence of the convenience sampling-strategy. The oldest siblings (aged 18) accounted for only 12% of the participants in the CHD group and were thus significantly underrepresented. Furthermore, siblings of children with complex CHD, who accounted for approximately two-thirds of the participants in our study, are naturally more burdened by interventions and associated hospitalizations than the siblings of children with moderate CHD (one-third of participants) or mild CHD (one participant). Consequently, no conclusions can be drawn about the HRQoL of siblings of children with simple CHD.

Eventually, because of these issues, three of the five predictors tested were not significant. Future research needs to include more balanced samples regarding the before-mentioned variables.

### **Future research avenues**

Despite the substantially impaired overall and domain-specific HRQoL of siblings of children with CHD found in our study, there is little research on this group (Schamong et al., 2021; Parker et al., 2020). However, due to their impaired HRQoL, these siblings urgently need support. To meet the requirements of the largest possible proportion of siblings of children with CHD, a larger group of them, including siblings of children with simple CHD, should be asked about their needs regarding support and resources, which should then be used within counselling for families of children with CHD and serve as elements of future interventions to improve sibling HRQoL.

Future interventions should focus on siblings' psychological well-being, since this HRQoL subdomain was the most impaired. Programs such as the German ModuS sibling workshop for siblings of children with disabilities and chronic conditions convey disease knowledge and self-esteem enhancement to reduce and prevent stress, while sensitizing parents to the needs of siblings (Ernst et al., 2020). Such programs could serve as a model which could be extended with a focus on coping with CHD-

specific concerns and burdens and could promote and reinforce existing resources and coping mechanisms (Schamong et al., *submitted*).

### **Implications for practice**

The study's results suggest that the HRQoL of siblings of children with moderate and complex CHD is severely reduced and that they urgently need support, particularly in the most impaired HRQoL-domain of psychological well-being. Special attention should be paid to female siblings. Raising awareness and reflecting on role models in society could help prevent the activation of unconscious gender stereotypes, which in turn lead to the unbalanced assumption of care work by female siblings (Perry and Pauletti, 2011). The fear of disease progression in those who perceive their siblings as visibly sick could be addressed through the enhancement of their medical knowledge (Ernst et al., 2020). Additionally, the fear that the sick sibling might be excluded or shamed could be reduced via self-empowerment and role-modelling techniques (Bagai and Erratt, 2019).

Despite of numerous affected siblings, no diagnostics of their QoL and support needs are performed, nor is there any support for them in the form of counselling or interventions. Therefore, healthcare providers should sensitize themselves and the families, particularly the parents, to the siblings' unique challenges. Additionally, siblings should be involved in the education process at diagnosis and in the planning of CHD treatment in an age-appropriate manner (Schamong et al., *submitted*). To do so, families could be referred to psychosocial staff on pediatric cardiology wards by the prenatal physicians making the diagnosis.

### **Conclusion**

The overall and domain-specific HRQoL of siblings of children with moderate and complex CHD are significantly lower than those of siblings of children with type 1 diabetes, likely because of the specific concerns and burdens affecting the former group. Future sibling support should urgently be developed and address particularly the siblings' psychological well-being and their specific concerns and burdens but also promote and reinforce existing resources and coping mechanisms. Since female sex and visibility of disease are predictors of lower HRQoL in siblings of children with CHD, future interventions should focus on these siblings and reflect their issues. Moreover, healthcare providers and caregivers should sensitize themselves and the siblings' families to the ongoing emotional challenges that siblings face.

### **Declaration of conflicting interests**

The author(s) declared no potential conflicts of interest.

### **Funding**

The author(s) received financial support for this article by ‘Verein der Freunde und Förderer des Herzzentrums des Universitätsklinikums Köln e.V.’.

ORCID iD

Alice S Schamong <https://orcid.org/0000-0001-6275-2679>

### **Supplementary material**

Supplementary material is available online.

## References

- André Q (2022) Outlier exclusion procedures must be blind to the researcher's hypothesis. *Journal of Experimental Psychology: General* 151(1): 213.
- Apley J, Barbour R and Westmacott I (1967) Impact of congenital heart disease on the family: preliminary report. *British Medical Journal* 1(5532): 103.
- Arrington-Sanders R, Yi MS, Tsevat J, et al. (2006) Gender differences in health-related quality of life of adolescents with cystic fibrosis. *Health and Quality of Life Outcomes* 4: 1-8.
- Azhar AS, AlShammasi ZH and Higgi RE (2016) The impact of congenital heart diseases on the quality of life of patients and their families in Saudi Arabia: Biological, psychological, and social dimensions. *Saudi medical journal* 37(4): 392.
- Bagai S and Erratt C (2019) Fighting the Bullying Epidemic: A Practitioner Inquiry into the Effects of an Intervention Strategy on Reaction to Bullying in School-Aged Children with Speech Disabilities. *Creative Education* 10(01): 26.
- Biber S, Andonian C, Beckmann J, et al. (2019) Current research status on the psychological situation of parents of children with congenital heart disease. *Cardiovascular diagnosis and therapy* 9(Suppl 2): S369.
- Bichard E, McKeever S, Bench S, et al. (2022) Experiences of siblings of children with congenital heart disease during Coronavirus disease 2019; A qualitative interview study. *Journal of Pediatric Nursing* 63: 96-101.
- Caris EC, Dempster N, Wernovsky G, et al. (2018) Perception scores of siblings and parents of children with hypoplastic left heart syndrome. *Congenital heart disease* 13(4): 528-532.
- Cohen J (1988) Statistical power analysis.
- Cohen J (2016) A power primer.
- Davison A and Hinkley D (2013) Bootstrap Methods and their Application. Cambridge University Press.
- DiMeglio LA, Evans-Molina C and Oram RA (2018) Type 1 diabetes. *The Lancet* 391(10138): 2449–2462.
- Ernst G, Klein L, Kowalewski K, et al. (2020) Ich bin auch noch da–Schulung für Geschwister von chronisch kranken oder behinderten Kindern. *Klinische Pädiatrie* 232(06): 300-306.
- Faul F, Erdfelder E, Lang A-G, et al. (2007) G\* Power 3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior research methods* 39(2): 175-191.
- Havermans T, Croock ID, Vercruyse T, et al. (2015) Belgian siblings of children with a chronic illness: Is their quality of life different from their peers? *Journal of Child Health Care* 19(2): 154-166.
- Hövels-Gürich HH (2016) Factors influencing neurodevelopment after cardiac surgery during infancy. *Frontiers in pediatrics* 4: 137.
- Ionescu-Iltu R, Mackie AS, Abrahamowicz M, et al. (2010) Valvular operations in patients with congenital heart disease: increasing rates from 1988 to 2005. *The Annals of thoracic surgery* 90(5): 1563–1569.



- Janus M and Goldberg S (1997) Treatment characteristics of congenital heart disease and behaviour problems of patients and healthy siblings. *Journal of paediatrics and child health* 33(3): 219-225.
- Jones PR (2019) A note on detecting statistical outliers in psychophysical data. *Attention, Perception, & Psychophysics* 81: 1189–1196.
- Kyavar M and Sadeghpour A (2014) Cyanosis. *Comprehensive Approach to Adult Congenital Heart Disease*. 37-43.
- Lavigne JV and Ryan M (1979) Psychologic adjustment of siblings of children with chronic illness. *Pediatrics* 63(4): 616-627.
- Limongi T, Brigo L, Tirinato L, et al. (2021) Three-dimensionally two-photon lithography realized vascular grafts. *Biomedical Materials* 16(3): 035013.
- Lindinger A, Schwedler G and Hense H-W (2010) Prevalence of congenital heart defects in newborns in Germany: Results of the first registration year of the PAN Study (July 2006 to June 2007). *Klinische Pädiatrie* 222(05): 321-326.
- Marelli AJ, Ionescu-Ittu R, Mackie AS, et al. (2014) Lifetime prevalence of congenital heart disease in the general population from 2000 to 2010. *Circulation* 130(9): 749-756.
- Masnari O, Neuhaus K, Aegerter T, et al. (2019) Predictors of health-related quality of life and psychological adjustment in children and adolescents with congenital melanocytic nevi: analysis of parent reports. *Journal of pediatric psychology* 44(6): 714-725.
- Matsuzaki Y, Wiet MG, Boe BA, et al. (2021) The real need for regenerative medicine in the future of congenital heart disease treatment. *Biomedicines* 9(5): 478.
- McBride-Chang C and Chang L (1998) Adolescent-parent relations in Hong Kong: Parenting styles, emotional autonomy, and school achievement. *The Journal of Genetic Psychology* 159(4): 421-436.
- McQuillen PS, Barkovich AJ, Hamrick SE, et al. (2007) Temporal and anatomic risk profile of brain injury with neonatal repair of congenital heart defects. *Stroke* 38(2): 736-741.
- Menke EM (1987) The impact of a child's chronic illness on school-aged siblings. *Children's Health Care* 15(3): 132-140.
- Nabors L, Liddle M, Graves ML, et al. (2019) A family affair: Supporting children with chronic illnesses. *Child: care, health and development* 45(2): 227-233.
- Parker R, Houghton S, Bichard E, et al. (2020) Impact of congenital heart disease on siblings: A review. *Journal of Child Health Care* 24(2): 297-316.
- Perry DG and Pauletti RE (2011) Gender and adolescent development. *Journal of research on adolescence* 21(1): 61-74.
- Pfitzer C, Helm PC, Ferentzi H, et al. (2017) Changing prevalence of severe congenital heart disease: Results from the National Register for Congenital Heart Defects in Germany. *Congenital heart disease* 12(6): 787-793.

- Poto, M. P. (2023). Dis-empowering Gender Stereotypes. In *Gender Diversity, Equity, and Inclusion in Academia: A Conceptual Framework for Sustainable Transformation. Gender Series* (pp. 1-10). Routledge.
- Ravens-Sieberer U, Herdman M, Devine J, et al. (2014) The European KIDSCREEN approach to measure quality of life and well-being in children: development, current application, and future advances. *Quality of life research* 23: 791-803.
- Schamong AS, Brockmeier K, Folkerts A-K, et al. (submitted) A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease. *Journal of Child Health Care*.
- Schamong AS, Liebermann-Jordanidis H, Brockmeier K, et al. (2022). Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review. *Journal of Child Health Care*, 26(2), 319-337.
- Shinoka T, Shum-Tim D, Ma PX, et al. (1998) Creation of viable pulmonary artery autografts through tissue engineering. *The Journal of thoracic and cardiovascular surgery* 115(3): 536-546.
- Stone E (2010) T test, independent samples. *Encyclopedia of research design* 3: 402.
- Sun R, Liu M, Lu L, et al. (2015) Congenital heart disease: causes, diagnosis, symptoms, and treatments. *Cell biochemistry and biophysics* 72: 857-860.
- Tutus D, Niemitz M, Fegert JM, et al. (2023) Chronische somatische Erkrankungen mit psychischer Beteiligung in Kindheit und Jugendzeit. *Psychiatrie und Psychotherapie des Kindes- und Jugendalters*. Springer, pp.1-19.
- Varni JW, Limbers CA and Burwinkle TM (2007) Impaired health-related quality of life in children and adolescents with chronic conditions: a comparative analysis of 10 disease clusters and 33 disease categories/severities utilizing the PedsQL™ 4.0 Generic Core Scales. *Health and Quality of Life Outcomes* 5: 1-15.
- Von Elm E, Altman DG, Egger M, et al. (2007) The Strengthening the Reporting of Observational Studies in Epidemiology (STROBE) statement: guidelines for reporting observational studies. *The Lancet* 370(9596): 1453–1457.
- Warnes CA (2005) The adult with congenital heart disease: born to be bad? *Journal of the American College of Cardiology* 46(1): 1-8.
- Warnes CA, Liberthson R, Danielson GK, et al. (2001) Task force 1: the changing profile of congenital heart disease in adult life. *Journal of the American College of Cardiology* 37(5): 1170–1175.
- Weems CF and Overstreet S (2008) Child and adolescent mental health research in the context of Hurricane Katrina: An ecological needs-based perspective and introduction to the special section. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology* 37(3): 487-494.
- Williams PD, Lorenzo FD and Borja M (1993) Pediatric chronic illness: effects on siblings and mothers.

Wray J and Maynard L (2005) Living with congenital or acquired cardiac disease in childhood: maternal perceptions of the impact on the child and family. *Cardiology in the Young* 15(2): 133-140.

**Beitrag III: Supplementary material**

**Supplementary Table C1**

*The STROBE guidelines: checklist of items that should be addressed in reports of observational studies*

	Item	Recommendation	Reported on manuscript page
<i>Title and abstract</i>			
	1	(a) Indicate the study's design with a commonly used term in the title or the abstract (b) Provide in the abstract an informative and balanced summary of what was done and what was found	P1, Title & Abstract
<i>Introduction</i>			
Background/rationale	2	Explain the scientific background and rationale for the investigation being reported	P2 & P3, Introduction
Objectives	3	State specific objectives, including any prespecified hypotheses	P3, Aim
<i>Methods</i>			
Study design	4	Present key elements of study design early in the paper	P3 to P7, Study design
Setting	5	Describe the setting, locations, and relevant dates, including periods of recruitment, exposure, follow-up, and data collection	P3, Study procedure and online questionnaire; P7, Results
Participants	6	(a) <i>Cohort study</i> —give the eligibility criteria, and the sources and methods of selection of participants. Describe methods of follow-up <i>Case-control study</i> —give the eligibility criteria, and the sources and methods of case ascertainment and control selection. Give the rationale for the choice of cases and controls <i>Cross-sectional study</i> —give the eligibility criteria, and the sources and methods of selection of participants (b) <i>Cohort study</i> —for matched studies, give matching criteria and number of exposed and unexposed <i>Case-control study</i> —for matched studies, give matching criteria and the number of controls per case	P3 & P4, Inclusion and exclusion criteria & Participant recruitment
Variables	7	Clearly define all outcomes, exposures, predictors, potential confounders, and effect modifiers. Give diagnostic criteria, if applicable	P4 & P5, Assessment of sociodemographic and disease-related data & Assessment of HRQoL
Data sources/measurement	8*	For each variable of interest give sources of data and details of methods of assessment (measurement). Describe comparability of assessment methods if there is more than one group	P4 & P5, Assessment of sociodemographic and disease-related data & Assessment of HRQoL
Bias	9	Describe any efforts to address potential sources of bias	Not applicable due to highly specific sample resulting in convenience sampling-strategy
Study size	10	Explain how the study size was arrived at	P5, Sample size calculation
Quantitative variables	11	Explain how quantitative variables were handled in the analyses. If applicable, describe which groupings were chosen, and why	P6 & P7, Statistical analyses
Statistical methods	12	(a) Describe all statistical methods, including those used to control for confounding	P6 & P7, Statistical analyses

		(b) Describe any methods used to examine sub-groups and interactions	
		(c) Explain how missing data were addressed	Not applicable. No missing data occurred
		(d) <i>Cohort study</i> —if applicable, explain how loss to follow-up was addressed <i>Case-control study</i> —if applicable, explain how matching of cases and controls was addressed <i>Cross-sectional study</i> —if applicable, describe analytical methods taking account of sampling strategy	Not applicable due to highly specific sample resulting in convenience sampling-strategy
		(e) Describe any sensitivity analyses	
<hr/> <i>Results</i> <hr/>			
Participants	13*	(a) Report the numbers of individuals at each stage of the study—e.g., numbers potentially eligible, examined for eligibility, confirmed eligible, included in the study, completing follow-up, and analyzed (b) Give reasons for non-participation at each stage (c) Consider use of a flow diagram	P7, Results
Descriptive data	14*	(a) Give characteristics of study participants (e.g., demographic, clinical, social) and information on exposures and potential confounders (b) Indicate the number of participants with missing data for each variable of interest (c) <i>Cohort study</i> —summarize follow-up time (e.g., average and total amount)	P7, Disease-related demographic characteristics & Table 1. No missing data occurred
Outcome data	15*	<i>Cohort study</i> —report numbers of outcome events or summary measures over time <i>Case-control study</i> —report numbers in each exposure category, or summary measures of exposure <i>Cross-sectional study</i> —report numbers of outcome events or summary measures	P9 to P11, Results including Table 2. and Figure 1.
Main results	16	(a) Give unadjusted estimates and, if applicable, confounder-adjusted estimates and their precision (e.g., 95% confidence interval). Make clear which confounders were adjusted for and why they were included (b) Report category boundaries when continuous variables were categorized (c) If relevant, consider translating estimates of relative risk into absolute risk for a meaningful time period	P7, Hypothesis 1: t-tests comparing HRQoL and P8 Hypothesis 2: Regression analysis Not applicable
Other analyses	17	Report other analyses done—e.g., analyses of sub-groups and interactions, and sensitivity analyses	Not applicable
<hr/> <i>Discussion</i> <hr/>			
Key results	18	Summarize key results with reference to study objectives	P9, Discussion (Introduction paragraph of the Discussion)
Limitations	19	Discuss limitations of the study, taking into account sources of potential bias or imprecision. Discuss both direction and magnitude of any potential bias	P11, Limitations
Interpretation	20	Give a cautious overall interpretation of results considering objectives, limitations, multiplicity of	P9 to P13, entire Discussion

		analyses, results from similar studies, and other relevant evidence	
Generalizability	21	Discuss the generalizability (external validity) of the study results	P11, Limitations
<hr/>			
<i>Other information</i>			
Funding	22	Give the source of funding and the role of the funders for the present study and, if applicable, for the original study on which the present article is based	Identifying Title page/Funding
<hr/>			

*Note.* Give such information separately for cases and controls in case-control studies, and, if applicable, for exposed and unexposed groups in cohort and cross-sectional studies. An explanation and elaboration article discusses each checklist item and gives methodological background and published examples of transparent reporting. The STROBE checklist is best used in conjunction with this article (freely available on the websites of *PLoS Medicine*, *Annals of Internal Medicine*, and *Epidemiology*). Separate versions of the checklist for cohort, case-control, and cross-sectional studies are available on the STROBE website. *Note:* Adapted following von Elm et al., 2007.

## Supplementary Document C1

### *Informative text on cross-sectional online study*

**We would like to invite you to the "cross-sectional online study on quality of life and support interest of siblings of children with congenital heart disease and type 1 diabetes".**

Dear siblings,

we, researchers at the University of Cologne, would like to learn more about the quality of life of siblings of children with congenital heart disease and type 1 diabetes, to improve counseling for this target group and to develop a training to support you siblings.

Our survey is for siblings of children/adolescents/young adults with congenital heart disease and type 1 diabetes aged 14 to 18 years and will take about 20 minutes. You can participate if you are already 18 years old, or your parents can agree if you are not yet 18. Also, your siblings should agree to share information about their age and condition. If they are not yet 18, your parents should also consent.

Unfortunately, there has been very little research on the situation of siblings. With your participation, you would therefore make an important contribution to improving support for siblings of children with heart defects and type 1 diabetes. Therefore, we would like to thank you in advance for your participation!

You can access the study via the link:

[https://www.soscisurvey.de/LQ\\_Geschwister\\_HF\\_Diabetes/](https://www.soscisurvey.de/LQ_Geschwister_HF_Diabetes/)

**Supplementary Document C2**

*Online survey including study information, Data protection and study questionnaires*

*(Note: Participants receive the following information on the first pages of the online survey. This is followed by the questionnaires for HRQoL)*

1

**Information on the "Study on Quality of Life and support interest of Siblings of Children with Congenital Heart Disease and Type 1 Diabetes".**

Dear siblings, dear children, adolescents and young adults with congenital heart defects and type 1 diabetes, dear guardians,

Welcome and thank you for your interest in this survey, which is being conducted in cooperation with the Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology and the Department of Medical Psychology | Neuropsychology and Gender Studies at the University of Cologne.

This survey is aimed at you if...

- you are 14 to 18 years old and have a brother/sister with a congenital heart defect or type 1 diabetes and agree to participate in the study if you are 18 years old, or your legal guardian agrees to participate in the study if you are under 18 years old.
- you, as a brother/sister with the condition (without age restriction), agree that your siblings may share information about your age and condition if you are 18 years of age or older, or your legal guardians agree if you are under 18 years of age.
- your native language is German, or you speak German very well and currently live in Germany

and

- you consider your mood to be stable at the moment

With the help of the results of this study, we as researchers at the University Hospital Cologne would like to develop a supportive offer, a training, for siblings of children with chronic diseases. In order to design this training in the best possible way according to your needs and wishes, we are very interested in your personal experiences and opinions. In particular, we would like to find out what worries, stresses and difficulties siblings experience in connection with their brother's/sister's illness and whether there are things that make it easier for them to cope with the illness. We would also like to know whether the illness of a brother/sister also has positive effects on siblings and their environment. In addition, we are of course also interested in what support healthy siblings would like to receive in order to cope better with their brother's/sister's illness and what concrete training on this topic could look like.

In case of changes and important information about the course and goals of the study, we will of course inform you as soon as possible.

---

Answering the questionnaire takes about 50 minutes. The Ethics Committee of the University Hospital of Cologne has approved this survey.

If you want to participate, it is important that you take enough time, because you can't cache the questionnaire and there is no "back" button. This means that you have to fill it out to the last page, otherwise your answers will be lost. However, you can simply leave the questionnaire page open and take a break in between if you feel like it.

If you realize in the course that you don't want to participate, that's no problem! ☺ Participation in the questionnaire is and remains voluntary and you can end it at any time. You can simply close the website and your answers will be deleted.



If you notice that you are sad or burdened during or after answering the questions, you can always contact the psychologist in charge of the study, Alice Schamong, at +49 221 478-32674, or [alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de).

You can't do anything wrong when answering! It is only important that you read the question carefully and choose the answer that appeals to you the most. It would be nice if you could answer all the questions. If you are unsure, it is best to choose the answer that applies to you the most. Your answers will of course be treated confidentially.

With your participation you make an important contribution to the creation of a training for siblings of children with congenital diseases. We would like to thank you very much for this! ☺

Alice Schamong, psychologist, M.Sc., study director and ward psychologist at the Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology at the University of Cologne  
+49 221 478-32674; [alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de)

Prof. Dr. Konrad Brockmeier, responsible for the study and Clinic Director of the Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology at the University of Cologne  
+49 221 478-32514 (secretary's office), [konrad.brockmeier@uk-koeln.de](mailto:konrad.brockmeier@uk-koeln.de)

Prof. Dr. Elke Kalbe, Study Contributor and Head of the Department of Medical Psychology | Neuropsychology and Gender Studies, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne of the University of Cologne  
+49 221 478-6669 (secretariat), [elke.kalbe@uk-koeln.de](mailto:elke.kalbe@uk-koeln.de)

---

On the following pages you will find information on data protection, data processing and consent to the study. We explain how we protect your answers. Then you can start with the questionnaire!

---

*Privacy information*

According to Art. 13 Data Protection Regulation we would like to inform you about the processing and storage of your data in the following project:

Procedure/Project	"Online study of potential factors influencing health-related quality of life as well as support needs of siblings of children with congenital heart defects compared with type 1 diabetes"
More detailed description procedure/project	Data processing in the context of an online questionnaire study
Contact data processor	<p><i>Study Guide:</i>                      M.Sc. psychologist Alice Schamong,                      Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology, University Hospital Cologne                      Kerpener Str. 62, 50937 Cologne, Germany                      Tel.: 0221478-32674                      alice.schamong@uk-koeln.de</p> <p><i>Locally responsible person:</i>                      Prof. Dr. Konrad Brockmeier                      Clinic and Polyclinic for Pediatric Cardiology, University Hospital Cologne                      Phone: 0221/478-32514                      Fax: 0221/478-32515                      E-mail: konrad.brockmeier@uk-koeln.de</p> <p><i>Local contributors:</i>                      Univ.-Prof. Dr. Elke Kalbe                      Head of the Institute for Medical Psychology   Neuropsychology and Gender Studies &amp; Center for Neuropsychological Diagnostics and Intervention (CeNDI)                      Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, University of Cologne                      Phone: +49 221 478-96244 (or 0221 478-6669, secretariat)                      Fax: 0221 478-3420                      E-mail: elke.kalbe@uk-koeln.de</p>
Persons concerned	<p>Participants aged 14 to 18 years with siblings with congenital heart defects or type 1 diabetes/siblings with congenital heart defects or type 1 diabetes</p> <p><i>Target total number of participants: 170</i></p> <p>(Siblings of children with</p>

	Congenital heart defects: 85; Siblings of children with type1 diabetes: 85)
Data collected	Sociodemographic data such as number of siblings, age, etc., diagnosis, concerns about the heart defect, stresses and difficulties caused by the heart defect, positive effects of the heart defect, facilitating aspects, health-related quality of life, need for support.
Profiling	There is no profiling.
Legal basis	Consent Art. 6 para. 1 a), Art. 7 and 8 DSGVO
Storage period / deletion of data	In 10 years at the earliest
Transfer to external body, if necessary to a third country	SoSciSurvey ( <a href="http://www.soscisurvey.de/de/privacy">http://www.soscisurvey.de/de/privacy</a> ) here you will find information about the technical data security of SoSciSurvey e.g. about SSL- encryption of data etc.
Data Protection Officer	Data Protection Officer of the University Hospital Cologne: Amin Bahrini Mousavi Kerpener Str. 62 - 50937 Cologne Phone: +49 221 478-88008- E-Mail: <a href="mailto:datenschutz@uk-koeln.de">datenschutz@uk-koeln.de</a>  Data Protection Officer at the University of Cologne: Gesa Diekmann Phone: +49 221 470-6370- E-Mail: <a href="mailto:dsb@verw.uni-koeln.de">dsb@verw.uni-koeln.de</a>
Data protection supervisory authority	State Commissioner for Data Protection and Freedom of Information of North Rhine-Westphalia Postfach 20 04 44 40102 Düsseldorf E-Mail: <a href="mailto:poststelle@ldi.nrw.de">poststelle@ldi.nrw.de</a>
Study funding	The study is financed by third-party funds from the "Verein der Freunde und Förderer des Herzzentrums des Universitätsklinikums Köln e.V."
Specification of termination criteria	<u>For individual study participants:</u> Participants have the option at any time during the study, without giving any reason and without incurring any disadvantage, to discontinue the study at their personal request. No explanation is required. Participants have the option to leave the online study at any time by closing the browser with the online study. In this

---

case, data entered up to this point will neither be sent nor saved. For the overall project: In the event of increased feedback from study participants that unexpectedly severe distress is occurring as a result of participation in the study, continuation of the study will be discontinued. For this purpose, an emergency number for feedback and relieving discussions with a psychologist will be integrated into the questionnaire. In addition, you have the possibility to contact this e-mail address at any time with questions and feedback: [alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de)

---

If necessary, the collected data will be pseudonymized and passed on to the study management or an agency commissioned by the study management for the purpose of scientific evaluation.

You can object to the data processing at any time, in which case we will check the legality and, if necessary, stop processing and delete the data in the event of justified objections. We would also like to point out that your data will be/was lawfully processed according to Art. 13 Para. 2 lit. c DSGVO until revocation. In addition, according to Art. 13 (2) (b), Art. 15, Art. 16, Art. 17, Art. 18 DSGVO, you have the following rights, which you can assert against the University Hospital Cologne:

- The right to rectify and, if necessary, complete the personal data concerning you.
- The right to data portability, so that we provide you with your specific data in an appropriate format, i.e. access (including providing a copy free of charge) to the personal data concerning you.
- The right to deletion if the collected data is no longer necessary for the stated purposes, in the event of revocation of consent (if the data was not stored due to legal requirements), in the event of a justified objection, if the data was stored unlawfully, or if deletion is required by legal obligation.
- The right to restrict processing insofar as you contest the accuracy, the processing is unlawful, erasure has been refused, the data is no longer needed for processing purposes or you have objected.

If you have any questions about data processing and the specific data stored about you, please feel free to contact us at the above addresses. If individual data have changed or are incorrect for other reasons, please let us know. Objections and possible complaints can be directed to the data protection officer of the University Hospital, higher-ranking complaints office is the State Commissioner for Data Protection.

---

The healthy siblings must agree to participate in the survey. The siblings with the disease must agree that information such as their age or their disease may be requested during the survey. If you are

under 18 years old, your legal guardians must give their consent for you according to Art. 8 of the GDPR.

Without the consents you are unfortunately not allowed to participate!

#### Declaration of consent

The aim of this study is to develop a supportive offer, a training, for siblings of children with chronic diseases. The ethics committee of the University Hospital of Cologne has approved this study.

I am sufficiently informed about the research project.

The nature, scope and importance of the study, the study objective, the study length and other requirements for me were explained to me in a precise and understandable manner.

I have had sufficient time to decide whether or not to participate in the study and I understand that participation in the study is voluntary. I may terminate my participation in this study at any time without giving any reason and without getting into trouble or suffering any other disadvantage.

I agree that the data collected as part of the survey may be recorded in pseudonymized form. A pseudonym is an alias that protects my real name and data. Accordingly, no one will be able to trace from publications who participated in this survey and the results will not be traceable to me. The IP address will not be collected. Only summarized results will be published.

I agree that the collected data, if necessary pseudonymized, will be passed on to the study director or a body commissioned by him for the purpose of scientific evaluation.

There is no payment for my participation in this study.

- 
1. I consent to the collection and processing of data in pseudonymous form (by a self-generated code that protects my real name and data) as part of this study.
  2. I can withdraw my consent to the processing of the data until the data evaluation is completed. In this case, my data record will be deleted from the survey. For this purpose, an identification code is used, which I create myself on the following page and which does not allow any conclusions to be drawn about my person. If I wish to withdraw my consent to the processing of the data, I can contact the study director Alice Schamong (alice.schamong@uk-koeln.de), stating the identification code. In this case, my data record will be deleted immediately.
  3. I agree that my data will be deleted after completion or termination of the study, having been retained for at least 10 years (standard scientific practice).

The survey will start as soon as you agree to the above points and agree to participate in the study.

---

Consent Participant survey (Please select Yes or No only once)

7

We are the parent/guardian and agree that our son/daughter, who is under 18 years of age, wishes to and may participate in the survey.

Yes

No

I am 18 years or older and agree to participate in the study.

Yes

No

---

Consent of the brother/sister with the disease (Please choose yes or no only once)

We are the legal guardians of the brother/sister with congenital heart defect/type 1 diabetes who is under 18 years of age and agree that our son/daughter consents to information about his/her condition and age being collected for the study.

Yes

No

I am the brother/sister with the congenital heart defect/type 1 diabetes and 18 years or older. I agree to have information about my heart defect and age collected for the study.

Yes

No

---

*(Only with the consent of the participants & the siblings, the participants will get to the next page in the questionnaire: creation of the pseudonymization code).*

You have the possibility to withdraw your consent to the processing of your data until the data evaluation is completed.

If you withdraw your consent, we will immediately delete your entire record from the study.

In order for us to find the record you want to delete; you need a code that you can create yourself.

To do this, you need to answer five simple questions about yourself. From the initial letters and other

information from the answers described in the questions, you will then produce the code as explained in the following example:

First and last letter of the month in which you were born: AL (for April)

Number of letters of your last name (in case of double name only the first last name): 5 (for Obama)

First and last letter of your birthplace: HG (for Hamburg)

First letter of the first elementary school you attended as a child: L (for Liebig Elementary School)

Number of your older siblings: 2 (for 2 older siblings)

Number of your younger siblings: 0 (for 0 younger siblings)

Your personal code would be: AL5HGL20

Making your code:

First and last letter of the month you were born: \_\_\_\_

Number of letters of your last name (in case of double name only first last name): \_\_\_\_

First and last letter of your birthplace: \_\_\_\_

First letter of the first elementary school you attended as a child: \_\_\_\_

Number of your younger siblings: \_\_\_\_

Your personal code is: \_\_\_\_\_

If you wish to withdraw your consent to data processing, please contact the study director Alice Schamong at the University Hospital Cologne ([alice.schamong@uk-koeln.de](mailto:alice.schamong@uk-koeln.de)) using this code.

Please make sure to enter information that you can remember well. You can also write down the code to be on the safe side.

Now we would like to ask you if you think that you have a stable mood at the moment or if something is stressing you out. Because we don't want the questions about you and your sibling's illness to upset you too much, a stable mood is a prerequisite for participating in the study.

My mood at the moment is...

stable

Not stable

*(Only by clicking on "stable" the participants get to the actual questionnaires to assess HRQoL by the KIDSCREEN questionnaires (Ravens-Sieberer et al., 2014) as well as demographic and disease-related*

*data as potential factors influencing HRQoL of siblings. In the following, the questions of the "KIDSCREEN-27 questionnaire", including the ten questions of the "KIDSCREEN-10 questionnaire" are listed, which were programmed into the online study exactly as shown below).*

Hello!

How are you? How do you feel? That's what we want to know from you. Please read each question carefully. What is the first answer that comes to your mind? Choose the circle that best fits your answer and click on it. By the way: This is not a test! So, you can't do anything wrong. But it is important that you answer all questions. Please keep the last week in mind, i.e., the last seven days. You don't have to show your questionnaire to anyone. And no one who knows you will look at your questionnaire afterwards.

1. Your health and exercise

1. how would you describe your health in general?

- excellent
- very good
- good
- less good
- bad

*If you think about last week....*

2. did you feel fit and well?

- not at all
- a little
- medium
- quite
- very

3. did you do a lot of exercise (e.g. running, climbing, cycling)?

- not at all
- a little
- medium
- quite
- very

4. were you able to run well?

- not at all
- a little
- medium
- quite
- very



*If you think about last week....*

5. have you been full of energy?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

2. Your feelings and moods

*If you think about last week....*

1. did you like your life?

- not at all
- a little
- medium
- quite
- very

*If you think about last week....*

2. were you in a good mood?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

3. did you have fun?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

*If you think about last week....*

4. did you feel sad?

- never
- rare
- sometimes
- often

always

5. did you feel so bad that you didn't want to do anything?

never

rare

sometimes

often

always

6. did you feel lonely?

never

rare

sometimes

often

always

7. have you been satisfied as you are?

never

rare

sometimes

often

always

3. family and leisure

*If you think about last week....*

1. do you have enough time for yourself

never

rare

sometimes

often

always

2. were you able to do the things you wanted to do in your free time?

never

rare

sometimes

often

always

3. did your mother/father have enough time for you?

never

rare

- sometimes
- often
- always

4. did your mother/father treat you fairly?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

5. could you talk to your mother/father if you wanted to?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

6. did you have enough money to do the same as your friends?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

7. did you have enough money for the things you need?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

4. friends

*If you think about last week....*

1. did you spend time with your friends?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

2. did you have fun with your friends?

- never

- rare
- sometimes
- often
- always

3. did you and your friends help each other?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

4. did you rely on your friends?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

5. school and learning

*If you think about last week....*

1. were you happy at school?

- not at all
- a little
- medium
- quite
- very

2. did you do well in school?

- not at all
- a little
- medium
- quite
- very

*If you think about last week....*

3. were you able to pay attention well?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

4. did you get along well with your teachers?

- never
- rare
- sometimes
- often
- always

Note: Adapted following Ravens-Sieberer et al.,2014.

*(The following are the questions to assess potential demographic and disease related factors influencing HRQOL of siblings of children with CHD and type 1 diabetes, which were programmed into the online study as below).*

Now we would like to learn a little more about you by asking you some questions about yourself. Please read each question carefully. Then choose the answer that comes to your mind first. It is important that you answer all the questions if possible. If you are not sure, choose the answer that most applies to you.

1. I am \_\_\_\_ years old

2. I am...

- male
- female
- non-binary

3. I have \_\_\_\_\_ siblings

4. I am the...

- younger brother/younger sister
- middle brother/middle sister
- older brother/older sister

5. are you currently attending school? If yes, which one?

- Comprehensive School
- Secondary school
- High school
- Vocational College
- No, I do not currently attend any school

6. what educational or professional qualifications have you achieved so far?

- Secondary school diploma
- Professional baccalaureate
- Baccalaureate
- Completed training
- I have not yet graduated

7. what is your current occupation?

- I am doing an apprenticeship
- I study
- I work
- I do not work/study because I am still in school
- I have no employment at the moment

Now we would like to tell you something about your brother/sister with the disease and about your experiences with sick siblings. Please read each question carefully. Then choose the answer that comes to your mind first.

It is important that you answer all the questions if possible. If you are not sure, choose the answer that most applies to you.

8. my brother/my sister with the disease is \_\_\_\_ years old

9. my brother/my sister has...

- a heart defect, and this \_\_\_\_\_
- type 1 diabetes

10. you can tell my brother/my sister that he/s got a disease.

- yes
- no

11. I have lost a brother or sister before and I am afraid that it could happen again.

- yes
- no

12. my mother has already lost an unborn child once.

- yes
- no
- don't know

**Beitrag III: References of supplementary material**

Ravens-Sieberer, U., Herdman, M., Devine, J., et al., (2014). The European KIDSCREEN approach to measure quality of life and well-being in children: development, current application, and future advances. *Quality of life research* 23: 791-803.

Von Elm, E., Altman, D.,G., Egger, M., et al., (2007). The Strengthening the Reporting of Observational Studies in Epidemiology (STROBE) statement: guidelines for reporting observational studies. *The Lancet* 370(9596): 1453–1457.

## 11 Lebenslauf

Alice Schamong, Psychologin, M.Sc.

### Persönliche Daten

geboren am	06.07.1981
in	Köln
Familienstand	Geschieden, zwei Kinder, geb. 2005 und 2014
Staatsangehörigkeit	Deutsch/Italienisch
E-Mail:	alice.schamong@uk-koeln.de

### Studium

Oktober 2001 - 2004	Rechtswissenschaften, Universität zu Köln
Oktober 2009 - März 2011	Bachelor Psychologie, Fernuniversität in Hagen
April 2011 - Juni 2014	Bachelor Psychologie, Universität zu Köln
Oktober 2015 - Februar 2019	Master Psychologie, Heinrich-Heine-Universität Düsseldorf
Seit Oktober 2020	Promotionsstudium Psychologie, Humanwissenschaftliche Fakultät, Universität zu Köln

### Berufliche Tätigkeiten

Januar 2002 - Juli 2004	Angestellt bei Holzmann & Walter GbR, Köln
August 2004 - Juli 2005	Kaufmännische Ausbildung im CM City Class Hotel Caprice, Köln
Oktober 2008 – August 2009	Angestellt bei Café Vielfalt, Köln
Oktober 2011 - Juni 2012	Forschungspraktikum, Social Cognition Cologne, Universität zu Köln
Oktober 2017 - März 2019	Forschungspraktikum und Masterarbeit, Medizinische Psychologie, Neuropsychologie und Gender Studies, Uniklinik Köln
Seit Juni 2018	Stationspsychologin der Klinik und Poliklinik für Kinderkardiologie, Uniklinik Köln

### Kindererziehung

September 2005 - 2008	Elternzeit
Juni 2014 - Oktober 2017	Elternzeit

### Mitgliedschaften

Seit April 2021	Wissenschaftlicher Beirat des Bundesverbandes Herzkranker Kinder e.V.
Seit Oktober 2023	Verein der Freunde und Förderer des Herzzentrums des Universitätsklinikums Köln e.V."

Köln, im Januar 2024



## 12 Publikationsliste

### Publiziert

Schamong, A. S., Liebermann-Jordanidis, H., Brockmeier, K., Sticker, E., & Kalbe, E. (2021). Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review. *Journal of Child Health Care*, 13674935211012933

### In Revision

Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Seven, Ü., & Kalbe, E (2022 subm). A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.

Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Pytel, V., Träuble, B., & Kalbe, E (2023 subm). Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.

### 13 Danksagung

Dem Verein der Freunde und Förderer des Herzzentrums des Universitätsklinikums Köln e.V. gebührt mein allergrößter Dank. Ohne die großzügige und jahrelange Unterstützung durch Sie, liebe Spendende, wäre die Durchführung dieses Projektes nicht möglich gewesen. Durch engagierte Menschen wie Sie wurde erst ein substantieller Erkenntniszugewinn auf einem bis dato kaum erforschten Gebiet ermöglicht, der in Zukunft unzähligen Geschwistern von Kindern mit Herzfehlern und ihren Familien zugutekommen wird. Auch im Namen dieser Geschwister und ihren Familien darf ich Ihnen ihren tief empfundenen Dank aussprechen.

*„Es ist nicht der Berg, den wir bezwingen - wir bezwingen uns selbst.“*

*(Sir Edmund Hillary, Erstbesteiger des Mount Everest)*

Dem Zitat folgend, handelt es sich bei der Anfertigung dieser Doktorarbeit, um meine ganz persönliche Besteigung des Mount Everest. Im Zeitraum der Anfertigung dieser Arbeit ereilte uns die Corona-Pandemie mit ihren vielfältigen Einschränkungen, sowie die lebensbedrohliche Erkrankung meiner Mutter und der Verlust meiner geschätzten Schwiegereltern Marlene und Manfred Linden. Dass diese Mammutaufgabe dennoch zu bewältigen war, bzw. dass ich mich überhaupt getraut habe dieses Projekt anzugehen und bis zum Ende durchzuziehen, verdanke ich in erster Linie Frau Prof. Dr. Elke Kalbe und Herrn Prof. Dr. Konrad Brockmeier, die mich vom ersten Tag an bei allen Themen, die diese Arbeit betrafen unterstützt haben. Diese Unterstützung ging weit über das Fachliche hinaus und beinhaltete auch regelmäßige motivierende und supportive Gespräche, auch und gerade in den besonders herausfordernden Phasen dieser Doktorarbeit. Meinen bisherigen beruflichen Werdegang, sowohl klinisch als auch wissenschaftlich, verdanke ich zum Großteil diesen beiden einzigartigen und warmherzigen Menschen, die in Lehre, Forschung und Klinik immer alles geben, um die Versorgung und somit auch die Lebensqualität von schwer erkrankten jungen und alten Menschen stetig zu verbessern. Dafür möchte ich an dieser Stelle von ganzem Herzen Danke sagen. Im gleichen Atemzug möchte ich an dieser Stelle aber auch Frau Prof. Dr. Birgit Träuble nennen, die nicht nur sofort Feuer und Flamme für das Projekt war, sondern sich im Rahmen der jahrelangen Begleitung des Forschungsprozesses auch immer wieder auf eine sehr freundliche und unkomplizierte Art durch fachlich und menschlich hilfreiche und ermutigende Unterstützung ausgezeichnet hat. Auch Ihr gebührt mein größter Dank. Einen unverzichtbaren Anteil an den jeweiligen Forschungsbeiträgen, aber auch an der Erstellung der gesamten Arbeit haben zudem noch Dr. Ann-Kristin Folkerts, Dr. Ümran Seven, Hannah Liebermann-Jordanidis sowie das gesamte Team der Arbeitsgruppe Medizinische Psychologie | Neuropsychologie und Gender Studies der Uniklinik Köln, Vanessa Pytel, Jana Boes, Yvonne Fürstenau, Prof. Dr. Elisabeth Sticker und die Elterninitiative herzkranker Kinder Köln e.V., der Bundesverband Herzkranker Kinder e.V., Herzkind e.V., Diabetes-kids.de sowie die Graduiertenschule der Humanwissenschaftlichen Fakultät der Universität zu Köln unter der Leitung von Frau Dr. Caroline Gaus geleistet. Vielen Dank, ohne Sie/euch wäre diese Arbeit nicht entstanden. Last but not least möchte ich auch

dem gesamten Kinderkardio-Team, allen voran Tanja Bauer, Danke sagen. Ihr habt mich im gesamten Zeitraum der Dissertation begleitet, unterstützt und aufgemuntert, wenn es mal schwierig wurde. In einem so konstruktiven und wertschätzenden Team zu arbeiten, gab mir die nötige Energie, die Anforderungen immer wieder zu bewältigen.

Einen ebenso wichtigen Anteil an der Durchführung dieser Arbeit hat meine Familie. Zuerst möchte ich deshalb meinen Eltern Gudrun Brosch und Enea Scimia danken, die mich über alles geliebt und in allem unterstützt haben. Danke Mama und Papa, dass ihr mir die schönste Kindheit bereitet habt, die man sich vorstellen kann. E Papa, lo sai, com'è profondo il mare. Ihr wart immer für mich da und habt immer an meine Fähigkeiten geglaubt, mich in allen Dingen ermutigt und mir stets zugetraut, jede Herausforderung zu meistern. Die erste wirklich große Herausforderung meines Lebens kam dann auch recht früh. Ich wurde ungeplant Mutter, was sich nicht nur als mein größtes Glück, sondern zugleich auch als Kompassnadel meines bis dahin richtungslosen Daseins entpuppte. Danke mein liebes Kind Nea Schamong, dass du mein Leben auf Kurs gebracht hast. Für dich habe ich das alles gestartet, damit du stolz sein kannst auf deine Mama. Neben meiner Tochter möchte ich auch meinem Sohn Neven Schamong dafür danken, dass er mich so froh und glücklich in den kleinen Dingen des Lebens macht, die doch eigentlich die Großen sind. Mein Mann Stefan Linden, der für mich neben den Kindern und meinen Eltern der wichtigste Mensch auf dieser Welt ist, hat die Gabe, die Dinge nicht unnötig schwer zu nehmen, sondern konstruktiv anzugehen. In diesen, aber auch vielen anderen Dingen konnte ich viel von ihm lernen. Neben der wunderschönen Zeit, die wir bisher miteinander verbracht haben, möchte ich ihm besonders dafür danken, dass er mir geholfen hat mich menschlich weiterzuentwickeln. Wenn ich an euch drei denke, wird mir warm ums Herz und ich danke euch, dass ihr mich immer aushaltet und die schönen, aber auch die schweren Momente mit mir teilt. Euch gebührt mindestens die Hälfte dieses Dokortitels.

Besonders danken für ihre immerwährende Unterstützung möchte ich außerdem Ellen Schamong, Heribert Schamong, Judith Schamong sowie Mirko Schamong und Seher Ergenekon mit Cem und Inci. Auch wenn es anders kam als geplant, ist es immer schön, mit euch zusammen zu sein und zu wissen, dass ihr weiterhin ein wichtiger Teil meiner Familie seid und ich immer auf euch zählen kann. Dasselbe gilt auch für meinen Cousin Lelio Nasturzi, dessen bedingungsloser Liebe und Unterstützung ich mir immer gewiss bin. Er hat mich aufgefangen und verstanden in den schwersten Zeiten meines Lebens, was ich ihm nie vergessen werde. Zusätzlich danke ich meiner lieben Oma Elsbeth Scheidtweiler Brosch für ihre Liebe und das Gefühl von Geborgenheit, dass sie mir immer vermittelt hat.

Neben meiner Familie möchte ich nun noch einige für mich besondere und inspirierende Menschen nennen, die auf ganz unterschiedliche Weise dazu beigetragen haben, dass ich nicht die Flinte ins Korn geworfen habe. Danke Sarah Terstiege, dass du „irgendwie anders“ bist und ich genau deshalb so gern mit dir zusammen bin. Du hast vor vielen Jahren die Freude zurück in mein Leben gebracht, die ein wichtiges Gegengewicht zu den Durststrecken im Laufe dieser Arbeit darstellte und hast mich im

Prozess dieser Arbeit immer wieder motiviert. Auch danke ich Sebastian Römisch, Marieke Boin-Soares, Nikola Hagen, Gabriele Ahaus und Meike Selke für ihre Freundschaft, ihre Tiefe, ihre Treue, ihren Humor und so manche emotionale wie praktische Unterstützung.

Neben meiner eigenen Familie habe ich diese Arbeit auch den unzähligen Familien von Kindern mit angeborenen Herzfehlern gewidmet, von denen ich viele auf Station, oder im Rahmen meiner Forschung kennenlernen durfte. Hierbei will ich besonders den Teilnehmenden meiner Studien danken, ohne die diese Doktorarbeit nicht möglich gewesen wäre. Ihr alle bewältigt große Herausforderungen und habt mich darin mit euren unglaublichen Ressourcen und eurer Kompetenz beeindruckt. Es war mir wichtig dies in meiner Arbeit herauszustellen und ich hoffe, dass mir das auch gelungen ist. Euer Expertenwissen weiterzugeben war und ist mein Ziel, und auch wenn es meine Aufgabe war euch zu beraten, habe ich doch so viel mehr von euch gelernt.

## 14 Erklärung

Ich versichere, dass ich die von mir vorgelegte monographische Dissertation mit Teilpublikationen selbstständig angefertigt, die benutzten Quellen und Hilfsmittel vollständig angegeben und die Stellen der Arbeit - einschließlich Tabellen und Abbildungen, die anderen Werken im Wortlaut oder dem Sinn nach entnommen sind, in jedem Einzelfall als Entlehnung kenntlich gemacht habe; dass diese Dissertation noch keiner anderen Fakultät oder Universität zur Prüfung vorgelegen hat; dass sie - abgesehen von der in der Übersicht der Forschungsbeiträge angegebenen Teilpublikation - noch nicht veröffentlicht worden ist sowie, dass ich eine solche Veröffentlichung vor Abschluss des Promotionsverfahrens nicht ohne Genehmigung des Dekanats vornehmen werde. Die Bestimmungen dieser Ordnung sind mir bekannt. Die von mir vorgelegte Dissertation ist von Frau Prof. Dr. Birgit Träuble und Frau Prof. Dr. Elke Kalbe betreut worden.

Übersicht der Forschungsbeiträge:

1. Schamong, A. S., Liebermann-Jordanidis, H., Brockmeier, K., Sticker, E., & Kalbe, E. (2021). Psychosocial well-being and quality of life in siblings of children with congenital heart disease: A systematic review. *Journal of Child Health Care*, 13674935211012933
2. Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Seven, Ü., & Kalbe, E (2022 subm). *A qualitative interview study with parent-sibling dyads exploring diagnosis-associated experiences and support needs of siblings of children with congenital heart disease*. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.
3. Schamong, A. S., Brockmeier, K., Folkerts, A.-K., Pytel, V., Träuble, B., & Kalbe, E (2023 subm). *Cross-sectional online study on health-related quality of life and its predictors in siblings of children with congenital heart disease*. [Manuscript submitted for publication]. University of Cologne, Faculty of Medicine and University Hospital Cologne, Pediatric Cardiology.

Ich versichere, dass ich alle Angaben wahrheitsgemäß nach bestem Wissen und Gewissen gemacht habe und verpflichte mich, jedmögliche, die obigen Angaben betreffenden Veränderungen, dem Promotionsausschuss unverzüglich mitzuteilen.