

Citizen Science for Health: Leren van MyOwnResearch



Eindrapportage van het Invitational Seminar 3 februari 2022
(11 april 2022)
Gaston Remmers

Inhoud

Introductie: aanleiding en context van dit document	3
Wat is Citizen Science?.....	4
Conceptueel kader	4
2. Schuurpunten en aanbevelingen	7
Ethiek	7
2.1 Opvattingen over het respecteren van de autonomie van burgers in gezondheidsonderzoek	7
Aanbevelingen	7
2.2 Opvattingen over de context waartegen de waarde van het onderzoek voor patiënten moet worden afgewogen	8
Aanbevelingen	8
Methodiek.....	9
2.3 Observatieel en Interventie-gericht onderzoek: de (on)mogelijkheid van hybride onderzoeksontwerp.....	9
Aanbeveling.....	9
2.4 Spanning tussen generaliseerbaarheid en individueel nut.....	9
Aanbeveling.....	10
2.5 Financieringsvoorwaarden beïnvloeden het methodologisch ontwerp.....	10
Aanbevelingen	11
Algemene conclusie	11
Aanbeveling.....	11
Bijlagen.....	13
Werkgroep Ethiek 1	13
Werkgroep Ethiek 2	16
Werkgroep Methodologie 1.....	18
Werkgroep Methodologie 2.....	21

Introductie: aanleiding en context van dit document

Citizen Science voor Gezondheid is een nieuw en opkomend thema in de Nederlandse gezondheidszorg en het gezondheidsonderzoek. Toch zoeken vele partijen naar manieren om het inhoud te geven; niet alleen zijn er inhoudelijk veel vragen, maar ook methodologisch en ethisch zijn de uitdagingen legio, en is het grotendeels onbekend terrein. De uitdaging is opgepakt door Amsterdam Public Health en Designlab Universiteit Twente. Gezamenlijk ambiëren ze richting te geven aan de zoektocht, en benutten daarvoor de casus van het project MyOwnResearch.

MyOwnResearch is een groot, bekroond Nederlands onderzoeksproject onder een duaal leiderschap van patiënten en experts, dat liep tussen 2018 en 2020. Het doel was een nieuw onderzoeksprotocol te ontwikkelen en te testen dat collectieve kennisontwikkeling mogelijk maakt op basis van door individuele burgers ontworpen gezondheidsexperimenten. De doelgroep betrof mensen met chronische vermoeidheid en ook met darmklachten. Deze mensen zijn onderzoekend en proberen dingen uit, maar momenteel kan de overgrote meerderheid van deze experimenten niet door wetenschappers worden gebruikt, vanwege een vermeend gebrek aan wetenschappelijke nauwkeurigheid. Aan de andere kant passen deze burgers niet in de typische gerandomiseerde klinische onderzoeken die vereist zijn voor de meeste medische onderzoeken.

Het MyOwnResearch-project ontwikkelde een voorstel om de werelden van burgerexperimenten en wetenschappelijk onderzoek te overbruggen. Daartoe is een groot consortium ontstaan, gefinancierd door de Samenwerkende Nederlandse Gezondheidsfondsen en Health Holland (een tak van de minister van Economische Zaken). Bij de conceptie in 2018 wekte het project veel verwachtingen bij patiënten, onderzoekers en financiers. Echter, anderhalf jaar en twee mislukte pogingen later om toestemming te krijgen van medisch-ethische beoordelingscommissies, besloten financiers en consortiumpartners het project te staken. De spanningen tussen opvattingen en zorgen over zowel ethiek, methodologie als gezondheid bleken te groot, en werden nog gecompliceerder door de juridische en financiële randvoorwaarden waarbinnen het project opereerde.

De ontgoocheling was groot onder zowel consortiumpartners, patiënten als financiers. Gezien de hoeveelheid geld en moeite die in het project is geïnvesteerd (€ 2,6 M), gezien de toenemende behoefte om te anticiperen op een samenleving waarin burgers minder afhankelijke rollen aannemen met betrekking tot hun eigen gezondheid, en gezien de opkomst van gepersonaliseerde geneeskunde en gerelateerde uitdagingen op het gebied van methodologie en data beheer, is er behoefte om diepgaand na te denken over zowel het proces als de inhoud van MyOwnResearch. Het belang daarvan werd onderstreept door de toekenning van de juryprijs '[Briljante Mislukking in de Zorg Award 2022](#)'. In haar motivatie

Amsterdam Public Health en DesignLab Universiteit Twente hebben daartoe op 3 februari 2022 een seminar georganiseerd. Doel daarvan was om handreikingen op te stellen voor toekomstige activiteiten op het gebied van Citizen Science for Health. Het hogere doel van deze reflectie op MyOwnResearch is om een onderzoeksagenda te formuleren voor de komende 5 jaar, die de randvoorwaarden creëert voor succesvolle deelname van patiënten en burgers in het gezondheidsonderzoek.

Ter voorbereiding op het seminar is een scoping paper opgesteld als input voor en ter afbakening van de beoogde reflectie. Het scoping paper is een zelfstandig document en als zodanig

beschikbaar¹. Het onderhavige document is een neerslag van de discussie met de deelnemers aan het seminar, en doet voorstellen voor vervolg.

Wat is Citizen Science?

MyOwnResearch was groots in haar scope en ambitie, en staat in die zin model voor de toename van patient-gedreven onderzoek en Citizen Science benaderingen in de Gezondheidszorg. Om de leerervaringen van MyOwnResearch in de juiste context te bezien, is het zinvol om kort Citizen Science te definiëren, en tevens de spanbreedte van *Citizen Science for Health* te duiden.

Het kader voor deze plaatsbepaling is onder meer beschreven in de ‘Kennisagenda onderzoek door en voor Patient(en)’(2019)², en wordt momenteel nader aangescherpt middels een internationale meertalige survey *Citizen Science for Health*. Deze survey wordt uitgevoerd door de werkgroep met de gelijknamige titel, onder de vlag van de European Citizen Science Association³.

Conceptueel kader

De historische wortels van Citizen Science reiken diep, en de stromingen die zich verwant of voorloper ervan voelen zijn talrijk. Dit gegeven leidt tot uiteenlopende definities en typering van Citizen Science, met elk eigen accentverschillen. De overeenkomst is echter eenvoudigweg dat in Burger Wetenschap burgers betrokken zijn bij onderzoek. Er is sprake van een samenwerking die kennisproductie tot doel heeft. Het CitizenLab Twente hanteert de volgende relationele definitie van Citizen Science: *Citizen Science omvat onderzoeksactiviteiten waarin burgers en wetenschappers (en eventueel andere partijen) samenwerken om tot waardevolle kennis te komen: waardevol voor individuele burgers, waardevol voor de wetenschap, waardevol voor de maatschappij.*⁴

De manier waarop de samenwerking en de betrokkenheid wordt ingevuld is zeer afhankelijk van het onderwerp van het onderzoek, en het domein. Burgers kunnen hierbij een eindeloos aantal rollen vervullen, en soorten onderzoekende vermogens inzetten⁵. De kern van die betrokkenheid is echter dat *Citizen Science de onderzoekende vermogens van burgers aanspreekt en ontsluit.*

Het potentieel aan Citizen Science projecten in het gezondheidsdomein laat zich goed vatten langs twee assen (zie figuur 1). Op de initiatief-as (horizontaal) vertegenwoordigt de ene pool een door (een) burger(s) geïnitieerd en uitgevoerd onderzoek, het andere een door onderzoekers geïnitieerd onderzoek. Op de doel-as (verticaal) staat de onderste pool voor onderzoek dat uitsluitend betekenis heeft voor één individu en de bovenste pool voor onderzoek dat juist de publieke gezondheid en algemene kennis- en productontwikkeling voor ogen heeft.

¹ Remmers GGA 2022: *MyOwnResearch: scoping paper als input voor het reflectieseminar 3 feb 2022*

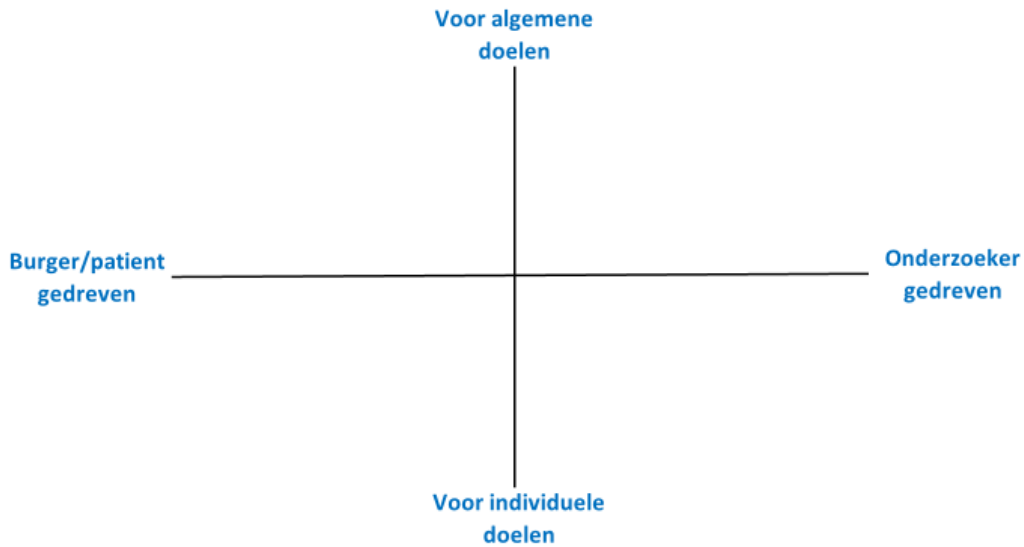
² Transitieteam GROZ, 2019: *Onderzoek voor en door Patiënten: een kennisagenda voor hogere kwaliteit van leven en meer maatschappelijke participatie door patiënt-gedreven onderzoek in gezondheid*. Opgesteld door MD|OG, Patiëntenfederatie, MIND en vereniging hersenletsel. Aangeboden aan ZonMw en Health Holland. <https://publicaties.zonmw.nl/onderzoek-voor-en-door-patienten/> pp 36

³ De survey is te benaderen via [deze link](#).

⁴ Handboek Citizen Science voor Gezondheid: reflectie op de ervaringen van Topfit Citizen lab. In voorbereiding, publicatie verwacht najaar 2022.

⁵ Strasser, B. J., Baudry, J., Mahr, D., Sanchez, G. and Tancoigne, E. (2019) “‘Citizen Science’? Rethinking Science and Public Participation”, *Science & Technology Studies*, 32(2), pp. 52–76. doi: 10.23987/sts.60425 .

Het potentieel van Burger Wetenschap voor Gezondheid



In het kwadrant links onder staat bijvoorbeeld de Quantified Self Movement. Deze is zeer krachtig in het verzamelen van data op individueel (n=1) niveau. Tevens zijn daar de vele experimenten met voeding en leefstijl die burgers dagelijks doen te situeren. Interessant voor henzelf, maar minder van waarde voor algemene kennisontwikkeling. In algemene zin wordt in de literatuur in toenemende mate het begrip *Personal Science* gemunt voor het kwadrant linksonder⁶: *the practice of exploring consequential questions by conducting self-directed N-of-1 studies using a structured empirical approach*. In dit kwadrant zijn echter ook de meer verhalende, intuïtievare en soms minder gestructureerde manieren van onderzoek te vinden, waarin mensen reflecteren op hun ervaringen en bevindingen, op webfora, in boekvorm en op andere manieren. Het benutten van deze bronnen vraagt om andere analyse technieken, waarvoor soms het concept '*patientenwetenschappen*' wordt gebruikt'.⁷ De diversiteit aan databronnen, individuele onderzoeksbenaderingen en manieren om daar vervolgens weer lering uit te trekken is kortom groot⁸.

In het kwadrant rechts boven staan citizen science projecten waarin burgers wetenschappers helpen. Dat doen ze bijvoorbeeld door locatie-specifieke data te verzamelen. Daardoor krijgen wetenschappers een dicht meetnetwerk, wat de betrouwbaarheid van voorspellingen vergroot. Voorbeelden zijn projecten waarin burgers de luchtkwaliteit met hun smartphone meten, tekenbeten doorgeven, of de nationale vogeltelling waarbij mensen vogels tellen in de tuin en de aantallen doorgeven aan onderzoekers. Denk ook aan de bewoners rondom Tata Steel die in samenwerking met RIVM middels sensoren aan hun huis de luchtkwaliteit in IJmuiden monitoren. In dit kwadrant zijn tevens bekende voorbeelden als FoldIt te vinden, waarin gamers onderzoekers helpen om de molecuulstructuur te doorgronden van een bepaald eiwit. Tevens zijn ook veel

⁶ Zie onder meer het recente proefschrift van Sara Riggare, een Parkinson patiënte die onderzoek naar zichzelf deed. Riggare, S., 2022: *Personal science in Parkinson's disease – a patient-led research study*. PhD thesis. Radbouduniversiteit. Donders series. Pp 223. ISBN 978-91-98-985230-2-7

⁷ Platenkamp, C., 2018: *Evolutie of Revolutie: van CCC met patientenervaringsverhalen naar Patientwetenschappen*.

⁸ Meer voorbeelden zijn te vinden in de eerdere aangehaalde kennisagenda 'Onderzoek door en voor Patiënten': Transitieteam GROZ, 2019: *Onderzoek voor en door Patiënten: een kennisagenda voor hogere kwaliteit van leven en meer maatschappelijke participatie door patiënt-gedreven onderzoek in gezondheid..* <https://publicaties.zonmw.nl/onderzoek-voor-en-door-patienten/> In het netwerk Citizen Science 2 Health, een landelijk platform van zelfonderzoekende communities rondom gezondheid, komen al deze stromingen samen.

eHealth applicaties voor thuismonitoring in dit kwadrant te plaatsen. De data, die vaak in een behandelrelatie worden gegenereerd, kunnen tevens benut worden door onderzoekers om bv nieuwe digitale biomarkers te ontwikkelen. Van grote algemene betekenis, maar van bescheiden directe waarde voor het individu. Tot slot zijn in het kwadrant rechtsboven de community health projecten te vinden. Daarin wordt op wijkniveau door bewoners zelf in kaart gebracht wat de gezondheidsuitdagingen zijn van hun gemeenschap, en welke interventies zinvol zouden kunnen zijn om hier het hoofd aan te bieden. Vaak gebeurt dit onder begeleiding of op initiatief van onderzoekers of beleidsmakers. Community health projecten kunnen uiteraard evengoed door bewoners zelf zijn aangezwengeld en gecoördineerd. In dat geval horen ze in het kwadrant links boven thuis.

De 'heilige graal' van Citizen Science voor Gezondheid zijn die projecten die zowel door burgers/patiënten als door onderzoekers worden aangedreven, en die zowel nut voor het individu opleveren als dat het algemene doelen dient.

Soms groeien door burgers gedreven projecten met een persoonlijk doel (LO) door naar projecten die door onderzoekers omarmd worden en ook publieke doelen dienen (RB). Dit is bijvoorbeeld het geval van Robin Koops. Deze DM1 patiënt ontwierp een apparaatje waarmee hij zijn insuline en glucagon spiegels kan beheren, waardoor hij niet meer afhankelijk was van strenge voedingschema's of de insuline spuit. Na 15 jaren ploeteren en weerstanden overwinnen werd zijn bedrijf Inreda uiteindelijk herkend als een nationaal innovatie-icoon. Het geval van Inreda is echter uitzonderlijk, de meeste innovaties die LO gedaan worden komen niet zover en blijven steken.

De ambitie van MyOwnResearch was om het innovatieproces te versnellen, en tegelijk met het leveren van waarde voor het individu ('werkt dit voor mij of niet') toe te werken naar kennis die ook op groepsniveau toenemende relevantie heeft. Reflectie op MyOwnResearch heeft dus betekenis voor meerdere facetten van Citizen Science. Tegelijk zijn er ook vormen van Citizen Science voor Gezondheid die een heel ander karakter hebben, en die een aparte reflectie verdienen.

2. Schuurpunten en aanbevelingen

Het seminar van 3 februari 2022 richtte zich op een inventarisatie van de schuurpunten op ethisch en methodologisch vlak. Desalniettemin was het onvermijdelijk dat andere punten ook ter tafel kwamen. Navolgende schuurpunten en aanbevelingen vormen een interpretatie van de 4 werkgroepen die plaatsvonden. De verslagen van de werkgroepen zijn als bijlagen toegevoegd.

Ethiek

2.1 Opvattingen over het respecteren van de autonomie van burgers in gezondheidsonderzoek

Bekrachtig je de autonomie van een burger in gezondheidsonderzoek het best door haar te beschermen tegen veronderstelde manipulatieve invloed, of door haar te ondersteunen in haar vermogen om weloverwogen beslissingen te maken?

Een METC handelt vanuit uitgangspunten vastgelegd in de Declaratie van Helsinki over medisch onderzoek, en is sterk geïnspireerd op het voorkomen van misbruik van burgers door onderzoekers zoals dat in de tweede WO plaatsvond in nazi Duitsland.

Het idee is dat burgers bescherming behoeven tegen malafide onderzoekspraktijken, én dat burgers dat zelf onvoldoende kunnen. Beide ideeën zijn waardevol en waar, en leiden tot een kritische bejegening van ingediende voorstellen. Tegelijk botsen ze in de uitvoering met veranderende maatschappelijke opvattingen over zelfsturing en het vermogen van individuele burgers om zelf risico's te kunnen inschatten. De vormgeving van MyOwnResearch (net als de subsidiecall waarbinnen het tot stand kwam), ademde deze veranderende opvattingen.

Met andere woorden, de taakomschrijving van METC's is waardegedreven, en waar deze taakopvatting niet tot onderwerp van debat wordt gemaakt, blijkt die tegenover de groeiende behoefte van burgers aan zelfsturing te staan. In die zin schuilt er een paternalisme in de bestaande taakopvatting van METC's. Daarnaast maakt het juridische kader waarbinnen een METC hoort te opereren het des te lastiger voor een METC tot andere overwegingen te komen. In die zin is er begrip voor de afweging die de METC in het geval van MyOwnResearch maakt, het kón eenvoudigweg net anders.

Het respecteren van de autonomie van een burger bij onderzoek roept dus een spanningsveld op: doe je dat primair door bescherming, of door empowerment? Bescherm je de burger door haar te behoeden tegen mogelijke schade of stel je haar in staat om zelf onderzoek te doen naar de risico's en een eigen ethisch reflectie te doen? Het spanningsveld doet denken aan de eerste jaren van 'shared decision making' waarbij artsen huiverig waren om het roer uit handen te geven. .

Van beide benaderingen van autonomie, bescherming versus empowerment, lijkt de eerste wel belegd in de taakopvatting van METC, en de tweede niet.

Aanbevelingen

1. Onderzoek de verschillende normen en waarden van verschillende stakeholders t.a.v. autonomie, bescherming en empowerment van deelnemers aan gezondheidsonderzoek. Maak dit bespreekbaar middels dialoog tussen patiënten, zorgprofessionals, onderzoekers, en juristen. Identificeer mogelijkheden om de autonomie van de burger op andere dan klassieke wijze te versterken.

2.2 Opvattingen over de context waartegen de waarde van het onderzoek voor patiënten moet worden afgewogen

Betreft de context de formele gezondheidspraktijk of de informele gezondheidspraktijk van burgers/patiënten? In de formele gezondheidspraktijk staat de systeemwereld van zorginstellingen en zorgprofessionals voorop, met bijhorende protocollen en noties over kwaliteitsborging. In de informele gezondheidspraktijk staat de leefwereld van burgers en patiënten centraal, waarin het persoonlijk nut bij een interventie zwaarder weegt dan de generaliseerbaarheid ervan.

Toetsende instanties hebben vrijwel altijd de formele gezondheidspraktijk voor ogen; er wordt gestreefd naar kennis die -meestal onder toezicht van een zorgprofessional – kan worden ingezet. Het leidt tot een voorkeur voor methoden die generaliseerbare kennis opleveren. Binnen Citizen Science staat de leefwereld van burgers op de voorgrond, een domein waar burgers autonomie hebben, en waarin vooral individueel nut van een interventie telt. In dat geval zouden ethische afwegingen ook anders kunnen zijn. Het vestigt opnieuw de aandacht op een nadere reflectie op de invulling van het begrip autonomie (bescherming versus empowerment). Daarnaast noopt onderzoek in de leefwereld van burgers tot een herziening van de methodiek van voorkeur. Zie daarvoor ook punt 2 onder methodiek ('generaliseerbaarheid versus individueel nut').

Voorgaand leidt tot de vraag of de het huidige medisch-ethisch toetsingskader voldoende toegerust is op een complexere werkelijkheid dan waarin het ooit is ontwikkeld. Is het denkbaar dat de afweging van ethische dilemma's verschillend kan zijn al naar gelang het type onderzoek.?

Aanbevelingen

2. Breng de informele gezondheidspraktijken van burgers beter in kaart. Haal daarvoor tevens inspiratie uit andere domeinen, o.a. het sociologische onderzoek naar agrarische bedrijfsstijlen
3. Start dialoogtafel over de (on)wenselijkheid om aanvullend toetsingskader (of eventueel een innovatieparagraaf) te ontwerpen voor onderzoek dat de informele gezondheidspraktijk van burgers als context heeft, en in algemene zin beter is toegerust om diverse vormen van Citizen Science passend te beoordelen.
4. Heroverweeg de aanwezigheid van burgers / patiënten als lid van een METC
5. Identificeer de risico's die nu worden waargenomen mbt burger-gedreven onderzoek, en benut de ruimte die er nu al is om ze aan te gaan. Dit zou kunnen op drie manieren:
 - a. door aan te sluiten bij participatief innovatieprogramma van CCMO
 - b. door bestaande ervaring met het beoordelen van patient-gedreven onderzoek te inventariseren (learning by analogy)
 - c. door de ervaring die al bestaat met het verantwoord medisch experimenteren, toe te passen op het experimenteren zelf. Dus meta-experimenteren: experimenteren met het experimenteren.

Methodiek

2.3 Observatieel en Interventie-gericht onderzoek: de (on)mogelijkheid van hybride onderzoeksontwerp

in de leefwereld van burgers zijn een oneindig aantal interventies mogelijk die ingrijpen in zeer heterogene omstandigheden, met vaak maar zeer ten dele begrepen werkingsmechanismen. Om grip te krijgen op deze heterogeniteit is het wenselijk om geleidelijk aan toe te werken naar subgroepen die een aantal kenmerken delen, alvorens experimenteel onderzoek te doen. De overheersende opvatting is dat er dan een keuze gemaakt moet worden tussen óf volledig observationeel onderzoek, zonder enige sturing door onderzoekers, óf een volledig gestuurd onderzoek, met sterke inperking van de vrijheidsgraden. Een hybridevariant, waarin kennis beschikbaar gemaakt wordt voor patiënten, die nog niet gevalideerd is, maar wel het zoekproces naar betere hypothesen zou kunnen bespoedigen, én het nut voor patiënten zou verhogen, problematisch is. Dit heeft MyOwnResearch ondervonden. Als snel verschijnt dan als ethisch dilemma de onwenselijke beïnvloeding, bijvoorbeeld door het bedrijfsleven, van deze patiënten. De focus zou moeten liggen op de gronden waarin een aanvaardbare afbakening van de vrijheidsgraden kan worden gemaakt.

Aanbeveling

1. Vergroot bewustzijn dat patiënt gedreven onderzoek vaak veldonderzoek is, waarin hypothesen worden gegenereerd maar niet getoetst. Voor het laatste is enorme statistische power nodig, voor het eerste minder. Benadruk dus de waarde van Citizen Science als observationeel, hypothese genererend project. Zorg wel voor een baseline meting en start dan pas een interventie.
2. Onderzoek op welke manier niet-gevalideerde interventies op een veilige manier onderzocht kunnen worden, en welke beslisgronden daarvoor aanvaardbaar zijn. Bezie de ontwikkeling van deze beslisgronden tegen de achtergrond van ethisch schuarpunt 1, namelijk de behoefte om de autonomie van patiënten ook te beschermen door hun vermogen om weloverwogen beslissingen te maken, te versterken.

2.4 Spanning tussen generaliseerbaarheid en individueel nut

Medisch onderzoek streeft bij voorkeur naar kennis die voor patiënten waarde oplevert, waarbij die waarde vaak wordt begrepen als 'kennis die voor groepen van patiënten waardevol is'. Het is ook inherent aan wetenschap om te zoeken naar kennis die het particuliere overstijgt. Ook het bedrijfsleven streeft naar kennis die kan worden ingezet voor producten die voor veel mensen relevant is. Deze logica is terug te vinden in de voorkeuren van onderzoekers en bedrijfsleven om naar groepsonderzoek te streven, zo mogelijk via gerandomiseerd, geblindeerd onderzoek. Met deze logica is niets mis; echter, hij verhoudt zich slecht tot de leefwereld van burgers die in zeer uiteenlopende omstandigheden gezondheidsinterventies met zichzelf uitvoeren. Tegelijk is steeds meer statistiek beschikbaar die het mogelijk maakt om statisch valide uitspraken te doen op $n=1$ niveau, met o.a. innovatieve vormen van het introduceren van placebo's en analyse van datapunten.

Een verschuiving naar studies op $n=1$ niveau sluit goed aan bij de maatschappelijk breed gedeelde wens om tot gepersonaliseerde gezondheidszorg te komen. Die praktijk wens wordt nog onvoldoende gereflecteerd in onderzoek op het individuele niveau.

Aandachtspunt hierbij is dat het simpelweg 'poolen' van veel n=1 studies niet zomaar conclusies voor groepen oplevert. De waarde van dergelijk n=1 onderzoek schuilt op de eerste plaats in de *helderheid* voor de direct betrokkenen (i.c. de patient-onderzoeker, en eventueel begeleidende arts en onderzoeker) *over het nut van de ingezette interventie*. Op de tweede plaats schuilt de waarde in de *methode* die is gebruikt om tot die helderheid voor het individu te komen; die is wél generaliseerbaar. Op de derde plaats zit de waarde in *de hypotheses* die dergelijk n=1 onderzoek oplevert, die vervolgens in prospectieve groepsstudies nader kunnen worden verrijkt en getoetst op generaliseerbaarheid.

Het versterken van (de status van) n=1 studies is niet alleen van belang voor burgers die onderzoek rondom hun eigen gezondheid doen, maar tevens voor zorgprofessionals, die in de praktijk aan de lopende band observaties doen, en wier waarde tot nu slechts traag en mondjesmaat de weg vind naar bevestigend onderzoek. Opgemerkt zij hierbij, dat juist in het n=1 onderzoek, zowel van patiënten als zorgprofessionals, de observaties vaak relatief bescheiden interventies en aanpassingen betreffen in de directe leefomgeving en leefstijl van de betrokkene. Juist deze relatief simpele en goedkope interventies kunnen wezenlijk verschil uitmaken voor de patiënt, en zijn bovendien vaak goedkoop in vergelijking tot medicijnen of andere interventies.

Aanbeveling

1. Versterk de status van n=1 onderzoek in Nederland
2. Streef in (burger-gedreven) n=1 onderzoek naar het versterken van voor burgers hanteerbare methoden van zelfonderzoek, die individuele kennis opleveren. De generaliseerbaarheid zit dan in de methode, niet zozeer in de inhoudelijke uitkomst.
3. Groepeer meerdere n=1 studies bij voorkeur alleen voor een analyse op groepsniveau indien er een nieuwe prospectieve studie aan gekoppeld wordt in een nader gedefinieerde subgroep.
4. Zorg dat in toetsingscommissies voldoende expertise over Citizen Science, in het bijzonder n=1 onderzoek, aanwezig is.

2.5 Financieringsvoorwaarden beïnvloeden het methodologisch ontwerp

Het maatschappelijk en wetenschappelijk besef van de complexiteit en integraliteit van gezondheid en de rol van burgers en patiënten hierin, maakt dat subsidiecalls almaar hogere ambities nastreven. Dit was ook het geval van BeterGezond, en is logisch en goed. Daar staat tegenover dat de randvoorwaarden niet een soortgelijke ontwikkeling doormaken, terwijl ze wel invloed hebben op de methodische aanpak die uitgedacht wordt, en de keuzes die gaandeweg gemaakt worden. Tegelijk is het niet vanzelfsprekend dat de kaders waarbinnen het onderzoek medisch-ethisch getoetst moet worden óók zijn meegegroeid met die complexiteit en verschuivende maatschappelijke dynamiek.

Ook MyOwnResearch heeft, in de aanloop van het uiteindelijke door de financiers geaccordeerde project, een transformatie ondergaan die liep van zuiver observationeel onderzoek richting hypothese bevestigend onderzoek. Dit moest geleverd worden in een scherp afgebakend tijdspad. Zo kon het gebeuren dat de formele duur van het project niet kon meegroeien met alle complexiteit die in dat tijdsbestek aan elkaar moest worden verknoopt, en dat het 'citizen' gedeelte relatief kleiner werd dan het 'science' gedeelte.

De verplichte deelname van bedrijfsleven is een tweesnijdend zwaard gebleken. Enerzijds hebben de bedrijfspartners binnen MORE zich zeer ondersteunend opgesteld en onderschreven ze volledig het zwaartepunt van het project, namelijk een nieuwe aanpak die betere hypothesen oplevert door zelfonderzoek van patiënten. Toch is in de aanloop van de formulering van het project, ook een

experimenteel design toevoegt op (sub)groep niveau, wat aanvankelijk niet de bedoeling was. De voorwaarden stipuleerden voorts dat het bedrijfsleven niet alleen meefinancierde, maar ook nadrukkelijk kennis inbracht en er waarde uithaalde. Juist op dat punt bleek de METC zeer gevoelig, omdat de inbreng van die kennis werd gekwalificeerd als ongewenste beïnvloeding. De vraag is uiteraard of dan geconcludeerd moet dat bedrijfsleven niet zou moeten participeren in Citizen Science onderzoek, of dat andere noties over de bescherming van 'proefpersonen' aan de orde zijn (zie punt 1 onder Ethiek). Beide punten verdienen nadere reflectie. Tot slot is het zinvol om, bij de uitvraag voor zeer innovatieve en complexe projecten, reflexieve monitoring toe te passen zonder al te harde timeframes en randvoorwaarden. Dit maakt het mogelijk rustiger en voorzichtiger te opereren.

Aanbevelingen

1. Onderzoek of en zo ja op hoe de betrokkenheid van commerciële partijen bij het ontwikkelen van Citizen Science het beste vorm gegeven kan worden
2. Onderzoek of de randvoorwaarden (tijd, budget, partners, focus) voor subsidie van CS projecten passen bij de aard en het vernieuwende karakter van de CS projecten
3. Overdenk, vanuit de subsidiegevers, de waarde van reflexieve monitoring als begeleidingsinstrument van gezondheids onderzoek, met name rondom thema's die een hoge mate van complexiteit veronderstellen en waarbinnen ethische kwesties en bestaande rolverhoudingen bevestigd worden.

Algemene conclusie

Citizen Science, in al haar verscheidenheid, zal in de komende jaren een grotere vlucht nemen. Dit bevestigt de gangbare en dominante modellen en structuren van kenniscreatie, waarbinnen RCT's de gouden standaard zijn. De uitdaging is om Citizen Science te ontwikkelen als een aanvullende, complementaire vorm van kenniscreatie, zonder afbreuk te doen aan de waarde van de gangbare vormen van kenniscreatie. Citizen Science kan bij uitstek waarde hebben als hypothese genererend kennismodel. De bestaande modellen zijn bij uitstek sterk in het toetsen van hypothesen. Drie elementen staan hierbij in onderling verband:

- opvattingen over ethiek (burger gestuurd / professional gestuurd),
- opvattingen over methodiek (sturend op bewijs of nut in de praktijk), en
- de te beschermen c.q. te ontwikkelen gezondheidspraktijk (formeel, van zorginstellingen / informeel, van burgers).

In een recent paper beschrijven Greenhalgh (2020)⁹ en Ogilvie et al.(202018)¹⁰ beide vormen van kenniscreatie als 'Evidence Base Practice' (i.c. het gangbare model) en 'Practice Based Evidence'. Dit laatste model bevat korte en snelle iteratieslagen, en stuurt op geleidelijke aanscherping van hypothesen, en past daarom beter bij Citizen Science.

Aanbeveling

1. Maak ruim baan voor ethische, methodologische en praktische ontwikkeling van Practice Based Evidence, als complement van Evidence Based Practice, en bundel de ingrediënten tot een sterk, aanvullend narratief.

⁹ Greenhalgh, T., 2020: Will COVID-19 be evidence-based medicine's nemesis? PLOS magazine 17(6): e1003266 <https://doi.org/10.1371/journal.pmed.1003266>

¹⁰ Ogilvie D, Adams J, Bauman A, Gregg EW, Panter J, Siegel KR, et al. Using natural experimental studies to guide public health action: turning the evidence-based medicine paradigm on its head. J Epidemiol Community Health. 2020; 74(2):203–8. <https://doi.org/10.1136/jech-2019-213085> PMID: 31744848

2. Werk de aanbevelingen in dit document uit in een serie dialoogtafels, georganiseerd door, patientenorganisaties, kennisinstellingen, en gezondheidsfinancierende instanties. Werk daarbij drie sporen uit: Ethiek, Methodiek, Programmering & Randvoorwaarden. Onder programmering & Randvoorwaarden vallen onder meer databeheer, capaciteitsontwikkeling, zichtbaarheid van Citizen Science initiatieven.

Bijlagen

Werkgroep Ethiek 1

Deelnemers

- Gaston Remmers (organisatie)
- Correte Ploem
- Sandra van Dijk
- Laila El Aziz
- Sarah Kerklaan (rapporteur)

Binnen groep 1 zijn 3 overkoepelende schuarpunten benoemd.

1 Verschillende perspectieven op wat bescherming van patiënten inhoudt

De METC handelt vanuit uitgangspunten vastgelegd in de Declaration van Helsinki over medisch onderzoek, en is sterk geïnspireerd op het voorkomen van misbruik van burgers door onderzoekers zoals dat in de tweede WO plaatsvond in nazi Duitsland.

Het idee is dat burgers bescherming behoeven tegen malafide onderzoekspraktijken, én dat burgers dat zelf onvoldoende kunnen. Beide ideeën zijn waardevol en waar. Tegelijk botsen ze in de uitvoering met veranderende opvattingen over zelfsturing en het vermogen om zelf risico's te kunnen inschatten door individuele burgers. Met andere woorden, er schuilt een paternalisme in, dat ongemak opwekt bij burgers, en dat ook binnen MORE een struikelblok was. *De ethiek van de bestaande medisch-ethische doctrines stuurt er primair op aan dat burgers in alle vrijheid kunnen besluiten over meedoen aan of stoppen met een onderzoek binnen een onderzoek door anderen georganiseerd*, en niet (al dan niet stiekem) genudged worden richting een bepaalde handelswijze of opvatting (buiten beschouwing laten we hier dat binnen RCT's er juist sprake is van extreme sturing). Het lijkt erop dat in die afweging niet wordt meegenomen dat burgers in hun dagelijkse leven continue zijn 'blootgesteld' aan allerlei invloeden en meningen. *De ethiek van MORE stuurde aan op het veiliger maken van keuzes binnen de dagelijkse leefwereld van burgers*. De context waarbinnen bescherming nodig geacht wordt is dus fundamenteel anders.

Er is dus een spanningsveld tussen het betrekken van burgers/patiënten bij onderzoek en het geven van vertrouwen aan burgers voor het vinden van goede oplossingen. Dit spanningsveld lijkt een beetje op de eerste jaren van *'shared decision making'* waarbij artsen huiverig zijn om het roer uit handen te geven. In essentie gaat het dus om de opvatting dat professionele onderzoekers beter weten dan patiënten/burgers wat veilig is of niet. Dat is vaak wel zo, maar soms ook niet.

Opgemerkt zij dat er heel voorzichtig wel een verschuiving merkbaar lijkt naar meer aandacht voor wat patiënten belangrijk vinden (in RCT's), bv toegenomen aandacht voor meer gepersonaliseerde uitkomstmaten. Echter, het aanmerken van patient reported outcome measures in RCT als *primaire* uitkomstmaat is lastig.

Actiepunten korte termijn

1. Onderzoek perspectieven op bescherming. Vorm een kenniskring/discussiekring met patiënten, zorgprofessionals, onderzoekers, juridische groep om dit te verkennen. Hoe kunnen we dit personaliseren cq hoe kan vanuit patiëntenperspectief bescherming gerealiseerd worden?

2. maak verschillende perspectieven op bestaande wetgeving bespreekbaar, laat dat onderwerp van sociaal onderzoek zijn en niet het exclusieve domein van juridisch deskundigen
3. Sta experimenten toe en bekijk
4. wees niet te bang als instituties, geef vertrouwen dat mensen zelf goede risico inschattingen kunnen maken
5. maak beter gebruik van patiëntverhalen bij het genereren van hypothesen en leg ze naast de meer wetenschappelijk traditionele hypothesen
6. zorg voor een gedeelde onderzoeksagenda samen met burgers en wetenschappers, zodat maatschappelijke relevantie onderzoek toeneemt
7. meet effectiviteit van bestaande (sociale) interventies die al zijn geïmplementeerd in de dagelijkse praktijk en deel de data met betrokkenen

Actiepunten lange termijn

1. ontwikkel een gedegen onderbouwde aanpassing voor bestaande wetten/beoordelingscriteria wetenschappelijk onderzoek
2. patiënten hebben nu geen plek in METC, dat moet wel veranderen
3. ontwikkel een ander narratief op wat risicovol is en wat niet
4. herbezinning, in de stijl Helsinki, op de directe koppeling tussen onderzoeksmethodiek en ethiek

2 Focus op borging van de formele zorgpraktijk vs borging van de informele zorgpraktijk

De medisch-ethische toetsing lijkt als referentiekader de dagelijkse zorgpraktijk van professionals te hebben. Immers, de uitkomsten moeten bruikbaar zijn, en zijn pas bruikbaar als die bruikbaar zijn in een behandelcontext. De kansen op protocoleerbaarheid, generaliseerbaarheid en herhaalbaarheid zijn dan belangrijke uitgangspunten. De intentie van MORE lag juist op het vlak van het verbeteren van de zelfzorg van patiënten: kan het onderzoek zo opgezet worden dat het, terwijl het onderzoek plaats vindt, waarde oplevert voor de deelnemers? In deze informele zorgpraktijk is juist sprake van een grote individuele variatie, die niet gemakkelijk generaliseerbaar is. De vraag rijst dus of de informele zorgpraktijk van burgers wel voldoende serieus genomen cq begrepen wordt, en of de formele ethische toetsingskaders hier op berekend zijn.

Vanuit juridische oogpunt is het zowiezo belangrijk om helder te krijgen / te maken binnen welke context onderzoek wordt gedaan. Is het een screening, is het onderzoek? Is het iets anders?

Actiepunten korte termijn

1. Breng de informele zorgpraktijk beter in kaart (bv a la 'bedrijfstijlen' uit de landbouwstudies in de jaren 90).

3 Perspectieven op wanneer iets onderzoekbaar is; hoe sterk moet de hypothese zijn?

Onderzoek veronderstelt een hypothese en een tenminste ontluikend idee over een mogelijk werkingsmechanisme. Maar als het onderliggende mechanisme maar gedeeltelijk bekend is, hoe sterk moet de onderbouwing ervoor zijn vooraleer iets uitgetoetst mag worden? MORE werkte met de darm-brein als hypothese, waarop probiotica of suppletie invloed kan uitoefenen. De variatie aan mogelijke betrokken parameters was echter groot. Vanuit juridisch oogpunt mag je pas iets uitproberen als het kunt verantwoorden. Daarbij speelt dat je zowiezo niets mag uitproberen als de methode niet verantwoord is. Afwijkende, ongebruikelijke methodiek kan dus op voorhand

rekenen op een strengere medisch-ethische screening. Het lijkt erop dat vernieuwende onderzoeksaanpakken daardoor in de knel komen, juist als het domein waarbinnen de vernieuwing zich afspeelt niet een gebruikelijke behandelcontext is, maar de zelfzorgcontext van een burger (zie punt 2).

Actiepunten

1. Doe gestructureerder onderzoek naar de bestaande praktijkvariatie
2. bouw een ICT infrastructuur op waardoor burgers sneller data en warnemingen kunnen delen

Werkgroep Ethiek 2

Deelnemers

- Peter-Paul Verbeek (organisatie)
- Henk Duinkerken
- Tjitske Bezema
- Evelyn van der Aa
- Egbert Siebrand (rapporteur)

Er stonden al veel schuurpunten in het rapport. Allereerst werd de vraag ingebracht of deze schuurpunten de toplaag zijn of dat er nog andere dingen spelen. Hierop volgde een korte interessante discussie die vooral ging over machtsverhoudingen, posities en angst. Misschien zijn dit meer factoren die de uitkomst bepalen dan de inhoudelijke kwesties. We zijn tenslotte allemaal mensen die onze positie proberen te behouden.

Een algemene observatie die naast deze aspecten van belang kan zijn, dus inhoudelijk, is dat het toch ook gaat over kernwaarden, bijvoorbeeld rondom goed onderzoek en wat het beste is voor de patiënt, en of de belasting voor hen opweegt tegen de opbrengsten

Dat, samen met een juridisch kader, betekent dat een METC toch vanuit een bepaald paradigma handelt en dat een verandering van denken noodzakelijk is om tot een paradigma verandering te komen. Tot dat dit het geval is, zal een METC afwegingen blijven maken zoals dat eerder gedaan is. Daarbij wordt er niet snel getornd aan de uitspraak. Waarschijnlijk omdat een METC is samengesteld uit leden die een bepaalde autoriteit hebben. Een METC heeft geen ruimte in de regels om anders te beslissen. In het geval van MyOwnResearch betekende dit dat de door MORE voorgestelde manier van werken niet kon worden toegestaan. De METC kon gewoon niet anders, en in die zin is er begrip voor hoe de METC reageerde.

Daarnaast werd aangedragen dat er ook angsten een rol kunnen spelen. Allereerst vraagt het van de indienende partij moed om tegen leden van een METC in te gaan, zij belichamen immers de autoriteit. Daarnaast vraagt het moed van METC-leden omdat het bestaansrecht van de METC, namelijk het beschermen van de patiënt, samenhangt met een kritische bejegening van ingediende voorstellen. Een METC is simpelweg niet ingericht op mondige burgers, maar heeft primair de kwetsbare, niet-mondige patiënt voor ogen. De normen en waarden voor het METC bestaansrecht stonden in die zin lijnrecht tegenover wat MORE wilde gaan doen. Dit is bedoeld als waarneming, niet als afkeuring van de positie van METC of het consortium, want beide waardensets zijn in zich zelf OK.

Concreet stond het METC tegenover MORE

- a) doordat de kwaliteitsbewaking van de medische praktijk belangrijker was dan het ophalen van n=1 ervaringen, en
- b) traditionele waarden van zorg tegenover de autonomie van de patiënt stond. Daarnaast,
- c) moet de patiënt door het METC beschermd worden. Tot slot,
- d) door de METC werd te weinig perspectief ervaren op hoe de risico's die zij waarnam konden worden verminderd

Uiteindelijk leidde de discussie tot de volgende **prioriteiten**:

1. normen en waarden METC vs doelen MORE

- a. Respecteer je de autonomie van de patiënt door bescherming of door empowerment? In andere woorden: bescherm je de patiënt door hem te behoeden tegen mogelijke schade of stel je hem in staat om zelfonderzoek te doen en een eigen ethisch reflectie te doen?
2. Welke kennis heb je nodig om beslissingen te nemen over onderzoek? Doe je dat op grond van (on)zekerheid over risico's of geef je ruimte aan experiment? Welke waarborgen heb je dan nodig als METC?
3. focus op bewijsvoering versus praktische bruikbaarheid (bv: heterogeniteit van producten en deelnemers in een onderzoek compliceert bewijsvoering, terwijl het comfort geeft aan de inbedding van het onderzoek in de leefwereld van patiënten. De vraag is dus: bestudeer je een fenomeen door het uit zijn context te isoleren, of bestudeer je het juist in zijn context.)
4. Kwaliteitsbewaking van de medische praktijk vs ophalen n=1 ervaringen

Actiepunten

1. Onderzoek de normen en waarden tav autonomie / bescherming / empowerment van patiënt middels een dialoog (geleidelijke stappen)
2. Identificeer de risico's die er nu zijn en benut de ruimte die er nu al is om ze aan te gaan. Kan op twee manieren:
 - i) door bv aan te sluiten bij participatief innovatieprogramma van CCMO
 - ii) Door de ervaring die al bestaat met het verantwoord medisch experimenteren, toe te passen op het experimenteren zelf. Dus meta-experimenteren: experimenteren met het experimenteren.

Actiepunten Lange termijn

1. Ontwikkel op basis van dialoog een nieuw toetsingskader voor METC's, en/of voeg innovatieparagrafen toe aan WMO / METC

Werkgroep Methodologie 1

Deelnemers

- Anje te Velde (organisatie)
- Martijn de Groot
- Jan Houtveen
- Pauline de Heer
- Ria Wolkorte (rapporteur)

Binnen groep 3 zijn 4 schuarpunten benoemd. In volgorde van prioritering zijn dat:

1 Observatieel vs experimenteel -de (on)mogelijkheid van hybride onderzoek

MORe probeerde de dagelijkse experimenten van mensen rondom hun gezondheid iets te structureren en tegelijk te observeren. Die structurering hield ook in dat het aantal keuzeopties voor deelnemers, in principe schier oneindig, werd ingeperkt tot een overzichtelijk aantal. Met die structurering werden de onderzoekers een interveniërende partij, wat ook leidde tot een ingewikkelde verhouding tot de benutting van kennis op basis waarvan de keuzeopties werden beperkt. Immers, een deel van die kennis werd geleverd door het bedrijfsleven en daarmee lag de invloed van het bedrijfsleven op tafel. De gronden voor de inperking van de vrijheidsgraden voor de deelnemers bleken problematisch voor de METC. Naar de mening van de deelnemers had de METC dan ook geen andere keus dan óf een puur observationele, óf een puur interventiestudie aan te bevelen. Schuarpunt is dus de (on)mogelijkheid om een hybride aanpak te organiseren. Deze (on)mogelijkheid haakt vooral op ethische aspecten.

De deelnemers geven aan dat naar hun mening bij toekomstige projecten, bij voorkeur moet worden ingezet op observationeel onderzoek. Citizen Science zou zich daarmee meer bezighouden met de exploratieve fase ipv interventies. Om wel iets te kunnen zeggen over de resultaten van een onderzoek op individueel niveau is het daarbij van belang om een baseline te meten. Deze insteek betekent wel dat moet worden zorggedragen voor realistisch verwachtingsmanagement: het onderzoek moet worden geframed als een verkennend, hypothesevormend onderzoek en niet zozeer een onderzoek dat generaliseerbare effecten onderzoekt. Het is daarbij ook van belang om onder andere naar burgers duidelijk te zijn, en aandacht te besteden aan educatie van burgers over het doel van zulke wetenschappelijke projecten.

Actiepunten korte termijn

1. Creëer ruimte en conceptueel begrip om Citizen Science vorm te geven als observationeel, hypothese genererend project; wel zorgen voor baseline meting en dan interventie starten
2. Doe aan verwachtingsmanagement richting beoordelaars, financiers, patienten en collega wetenschappers: framen als verkennend onderzoek, geen effect beloven
3. Educatie van burgers over wat wetenschap bedrijven inhoudt

2 Financieringsvoorwaarden beïnvloeden het methodologisch ontwerp

De deelnemers constateren dat in de aanloop naar de uiteindelijke en goedgekeurde project formulering bij MORe concessies zijn gedaan qua methodologie (oa toevoegen van experimenteel design/interventieonderzoek op (sub)groep niveau) om daarmee tegemoet te komen aan eisen van cofinanciers en de strakke kaders van de subsidieverstrekking. Het is voor de toekomst van belang dat samen met subsidieverstrekking goed wordt gekeken naar mogelijkheden voor onderzoek waar

geen belangen moeten worden vervuld die tegenstrijdig zijn aan het doel van het (exploratief) citizen science onderzoek.

Actiepunten korte termijn

1. geen methodologische concessies doen om tegemoet te komen aan eisen (co-)financiers

3 N=1 vs groepsniveau: welke soort kennis is generaliseerbaar?

Een belangrijke keuze is of onderzoek plaatsvindt op individueel- of groepsniveau. In MORE (en waarschijnlijk in vele toekomstige CS onderzoeksprojecten) is gekozen voor een nadruk op individueel niveau. Dit ook omdat het hier ging om een complex probleem waarbij mogelijke oplossingen sterk kunnen verschillen tussen individuen. Het is van belang om ervoor te zorgen meer onderzoekers, beleidsmakers, en leden van de METc bekend raken met de n=1 methodologie en de meerwaarde ervan. Hierbij is het ook helpend als experts op het gebied van n=1 onderzoek plaatsnemen in METc commissies. Er is inmiddels een internationale, solide basis voor methodologie en statistiek op n=1 niveau.

MyOwnResearch stelde voor om vanaf n=1 onderzoek op een geleidelijke manier toe te werken naar de identificatie van homogener subgroepen. Deze insteek leverde geen schuarpunt met de METC op. De deelnemers zijn van mening dat het fundamenteel onmogelijk is, en daarmee ook een denkfout, dat op basis van gepooled n=1 onderzoek direct conclusies op groepsniveau kunnen worden getrokken. Preciezer gezegd: het achteraf poolen van n=1 studies met deelnemers met ogenschijnlijk overeenkomende kenmerken, en dáár generaliserende conclusies aan verbinden, is niet correct. Wat wél kan, is een nieuwe prospectieve studie verrichten met de deelnemers die ogenschijnlijk enkele kenmerken gemeen hebben. Dit was precies de opzet van MyOwnResearch.

Ook de wens om tot generaliseerbare conclusies te komen (tevens een veronderstelde noodzaak binnen het denkraam van de WMO, 'het moet kennis in het belang van de patiënt opleveren'), drijft onderzoekers dan sneller richting analyses op (sub)groepsniveau. De vraag die de groep hier op werpt heeft een grotere reikwijdte dan het MyOwnResearch project, omdat hiermee ook vraagtekens worden gezet bij 'regulier' onderzoek waarin mensen die in verondersteld homogene groepen worden verdeeld, en die vervolgens onder strikte condities een interventie (placebo/verum) te ondergaan. De vraag zet de schijnwerpers op de representativiteit van medisch onderzoek.

De kans voor n=1 Citizen Science is om niet de *analyses* naar een groepsniveau te tillen, maar juist de *methode*; niet uitzoeken welke oplossing voor de hele subgroep werkt, maar juist uitzoeken hoe men op een gestructureerde manier kan onderzoeken welke oplossing op individueel niveau werkt. Dit is zeer waardevol voor patiënten, want het verschuift de vraag naar: 'wat heb je gedaan wat voor je werkt', naar 'hoe en je tot de ontdekking gekomen dat dit voor je werkt, en zou ik een dergelijke aanpak kunnen volgen'. Dit vraagt om een andere insteek van nieuw op te zetten projecten. Hierbij is het dan ook van belang om aan verwachtingsmanagement te werken: het onderzoek creëert geen generaliseerbare kennis maar een generaliseerbare methodiek. Hiervoor zou het kunnen helpen om een paper te schrijven over wat er op het gebied van n=1 onderzoek al mogelijk is in Nederland. Ook kan het proefschrift van Sara Riggare – met onder andere een ethische reflectie op het gebruik van n=1 onderzoek – worden bestudeerd en breed gedeeld.

Actiepunten korte termijn

1. Paper schrijven over wat al wel mogelijk is in Nederland
2. pdf van promotie (ethiek van n=1) delen

3. Zet in calls en programma's in op het creëren van generaliseerbare methodiek, en niet zozeer op het najagen van generaliseerbare kennis mbt specifieke medische interventies

4 Polarisation – complementaire vormen van kennisverwerving

De deelnemers geven aan dat zij niet het idee hebben dat het paradigma verschil tussen het voorgestelde MORE project en de 'reguliere' wetenschap zo groot is als nu geschetst wordt in het scoping paper. Er zijn binnen de wetenschap diverse stromingen anders dan de positivistische insteek die in het scoping paper wordt uitgelicht. Wel wordt herkend dat juist binnen de geneeskunde dit positivistische paradigma erg hardnekkig en dominant is. De deelnemers raden aan om MORE te zien als een complementaire vorm van kenniscreatie, en niet zozeer als een alternatief paradigma. Dit vergroot de kans om een gezamenlijke basis te vinden en om n=1 projecten – en daarmee citizen science – naast langer bestaande methodieken een plek te geven.

Actiepunten korte termijn

1. Ontwikkel Citizen Science als complementaire kenniscreatie, niet als een alternatief paradigma

Actiepunten lange termijn

1. Neem ook n=1 experts in METc op

Werkgroep Methodologie 2

Deelnemers

- Martine de Bruijne (organisatie)
- Aletta Kraneveld
- Marco Koning
- Edwin Duurland
- Gerjan Navis
- Stan van Belkum
- Rouming Hu
- Lieke Heesink (rapporteur)

In de groep werd gesproken over de schuurpunten van het MORE project in het bijzonder, maar ook over schuurpunten binnen citizen science projecten in het algemeen. De schuurpunten waarover gesproken werd, zijn grofweg onder te verdelen in vier onderwerpen: Randvoorwaarden van de subsidie; het huidige onderzoekssysteem vs citizen science; statistische power in relatie tot hypothesegenererend onderzoek s; METC/wetgeving.

1 Randvoorwaarden van de subsidie beïnvloeden onderzoeksopzet

Omdat de subsidie bepaalde kaders en randvoorwaarden stelde, stond het echte innovatie in de weg. De huidige kaders van subsidieverstrekkingen zoals ZonMw en Health Holland passen niet goed bij citizen science. Daarbij werd bijvoorbeeld geëist dat er een publiek-private samenwerking werd opgezet. De rol van commercie heeft in de weg gezeten, het feit dat bedrijven graag de werking van hun product willen aantonen compliceert de aanpak, er rolt dan een iets andere onderzoeksopzet uit, met een iets grotere nadruk op het aantonen van werkzaamheid. Iets nieuws zoals citizen science, kan die complicerende factor er eigenlijk niet meer bij hebben. Daar komt bij dat subsidiecellen enerzijds een zeer grote ambitie, complexiteit en 'hip-heid' stimuleert (dat op zich gewaardeerd wordt), maar anderzijds de subsidie voorwaarden het project toch in een keurslijf (qua tijd en focus) van een meer traditioneel onderzoek drukken. Zo kon het gebeuren dat de formele duur van het project niet kon meegroeien met alle complexiteit die in dat tijdsbestek aan elkaar moest worden verknoopt, en dat het 'citizen' gedeelte relatief kleiner werd dan het 'science' gedeelte.

Actiepunten korte termijn

1. Onderzoek of en zo ja op hoe de betrokkenheid van commerciële partijen bij het ontwikkelen van Citizen Science het beste vorm gegeven kan worden
2. Onderzoek of de randvoorwaarden voor subsidie van CS projecten passen bij de aard en het vernieuwende karakter van de CS projecten

2 Het huidige onderzoekssysteem vs citizen science: hoe kan de leefwereld van burgers écht meegenomen worden?

Als patiënten worden uitgenodigd als ervaringsdeskundige in bijvoorbeeld feedbackgroepen, worden zij ook onderdeel van het systeem, met als gevolg dat ook hun werk binnen de geschetste kaders moet vallen. Voorbeeld: als wetenschapper ben je verantwoordelijk voor de juiste uitvoer van wetenschappelijk onderzoek, binnen de daarvoor bestaande kaders/wetgeving. Als je als patiënt bijdraagt, wordt je ook onderdeel van dit systeem, en komt de leefwereld verder af te staan. Denk

aan data die een patiënt zelf aandraagt, een wetenschapper mag daar niet altijd iets mee doen, hoe interessant ze ook zijn. De leefwereld wordt als het ware 'overgenomen' of 'opgegeten' door de systeemwereld. Dat komt innovatie niet ten goede. Daarnaast zijn de huidige kaders van bijvoorbeeld ZonMw wellicht nog niet geschikt voor het hele diversiteit aan citizen science projecten (met name projecten met de patient in the lead), bijvoorbeeld onderzoek waarbij je gaandeweg nog aanvullende vragen kunt definiëren.

Actiepunten korte termijn

1. Kijk naar andere casussen om van te leren (learning by analogy), zowel binnen als buiten de gezondheidsdomeinen
2. Onderzoek of de kaders van het onderzoekssysteem anders ingevuld kunnen worden, zodat de rol van patiënten als mede-onderzoekers beter uit de verf komt
3. Stel methodologische kennis en expertise beschikbaar aan patiëntenpopulaties. M.a.w. maak een loopbrug tussen wetenschap en patiënten, waarin wetenschappers makkelijker kunnen meedenken met patiënten. Het is uiteraard niet de bedoeling dat dit dan uitloopt op overvleugeling van de patiënten.

3. Hoe noodzakelijk is statistische power in hypothese-genererend onderzoek?

Er was sprake van een statistische powerdiscussie. In het project zou de subjectieve maat van de deelnemers gekoppeld moeten worden aan andere onderzoeksmaten, volgens een poweranalyse zou je daar een zeer grote onderzoeksgroep voor nodig hebben. Daarnaast zouden huisartsen samen met de deelnemer besluiten voor welke interventie gekozen zou worden, wat vanuit methodologisch oogpunt een groot bezwaar is.

Actiepunten

1. Vergroot bewustzijn dat patiënt gedreven onderzoek vaak veldonderzoek is, waarin hypothesen worden gegenereerd maar niet getoetst. Voor het laatste is enorme statistische power nodig, voor het eerste minder

4 METC/wetgeving: is het toetsingsregime te beperkt?

Bij patiënten is niet altijd bekend hoe je data zou moeten verzamelen waar onderzoekers binnen de kaders van de wet ook mee mogen werken. Data die door sommige patiënten worden verzameld, kunnen voor onderzoekers heel leerzaam zijn, maar zouden onderzoekers nooit mogen verzamelen, omdat de wet daar geen ruimte voor biedt. Toetsing vindt altijd plaats binnen deze kaders, ook citizen science onderzoek moet zich houden aan de wettelijke kaders van de WMO. Hoe zit het met deze wettelijke kaders? Zijn de kaders berekend op Citizen Science, of zijn er mogelijk meerdere toetsingsregimes nodig? En in hoeverre is er expertise over citizen science aanwezig/wordt dit meegenomen in de toetsing? Zo kan de afweging van ethische dilemma's verschillend zijn in verschillende typen onderzoek. Bij sommige vraagstukken, bijvoorbeeld testen nieuw geneesmiddel met mogelijke bijwerkingen staat bescherming centraal (vandaar WMO). Bij onderzoek zonder geneesmiddelen of medische hulpmiddelen op voorschrift, met vrij beschikbare middelen, staat autonomie en zelfbeschikking voorop en zou citizen science beter kunnen passen.

Actiepunten korte termijn:

1. Onderzoek of de toetsingskaders berekend zijn op Citizen Science, of dat er mogelijk een aanvullend toetsingsregime nodig is
2. Onderzoek of er voldoende CS expertise aanwezig is binnen bestaande toetsingsgremia

Algemene actiepunten korte termijn

1. Kijk naar projecten die wel gelukt zijn (learning by analogy). Er zijn voorbeelden van projecten waar het onderzoek niet volledig gecontroleerd is, maar vanuit de praktijk opgezet. Hoe kan het dat deze projecten wel van de grond komen, er zelfs onderzoekers op promoveren. Kijk ook naar projecten die weliswaar niet zo vooruitstrevend zijn als MyOwnResearch, maar wel aanknopingspunten bieden.
2. Zoek uit hoe je gebruik kunt maken van data die door patiënten zijn verzameld, ook al zijn ze niet binnen de WMO verzameld.
3. Verbreed kennis over citizen science binnen de onderzoekswereld / METC / wetgeving.
4. Verbreed kennis over wetenschappelijk onderzoek bij het grote publiek