

Aus der  
Universitätsklinik für Kinder- und Jugendmedizin Tübingen

Abteilung Kinderheilkunde I mit Poliklinik  
(Schwerpunkt: Hämatologie, Onkologie, Gastroenterologie,  
Nephrologie, Rheumatologie)

**App-basiertes Krankheitsaktivitätsmonitoring und  
telemedizinische Sprechstunden bei  
Autoinflammatorischen Erkrankungen**

**Inaugural-Dissertation  
zur Erlangung des Doktorgrades  
der Medizin**

**der Medizinischen Fakultät  
der Eberhard Karls Universität  
zu Tübingen**

**vorgelegt von**

**Oefelein, Lea Maria Theresa**

**2024**

Dekan:	Professor Dr. B. Pichler
1. Berichterstatterin:	Professorin Dr. J. Kümmerle-Deschner
2. Berichterstatter:	Professor Dr. B. Hellmich
Tag der Disputation:	19.12.2023

Meinen Eltern

# Inhaltsverzeichnis

<b>Abbildungsverzeichnis</b>	<b>IV</b>
<b>Tabellenverzeichnis</b>	<b>V</b>
<b>Abkürzungsverzeichnis</b>	<b>VI</b>
<b>1 Einleitung</b>	<b>1</b>
<b>1.1 Autoinflammation und Autoinflammatorische Erkrankungen (AID)</b>	<b>1</b>
1.1.1 Grundlagen und Historie autoinflammatorischer Erkrankungen	1
1.1.2 Monogene und unklassifizierte AID	2
1.1.3 Allgemeiner Diagnosealgorithmus bei Verdacht auf AID	5
1.1.4 Therapie der AIDs	7
1.1.5 Krankheitsaktivitäts- und Damage-Monitoring	8
1.1.6 Psychosoziale Folgen und heutige Herausforderungen im Management von AIDs	9
<b>1.2 eHealth, Telemedizin und mHealth</b>	<b>10</b>
1.2.1 Allgemeine Begriffserklärung	10
1.2.2 Krankheitsmonitoring via App	10
1.2.3 Telemedizinische Sprechstunden und Konsile	11
1.2.4 Telemedizin unter dem Einfluss der COVID-19 Pandemie	11
<b>1.3 Benutzererfahrung und Technologieakzeptanz</b>	<b>12</b>
1.3.1 Forschung im Bereich von Technologie-Benutzererfahrungen	12
1.3.2 Forschung und Methoden zur Evaluation von Technologie-Akzeptanz	12
<b>1.4 Ziel und Fragestellung der Dissertation</b>	<b>13</b>
1.4.1 <b>Pilotstudie arcTmobile:</b> Evaluierung der Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit und Akzeptanz einer App zum Krankheitsaktivitätsmonitoring für AID-Patienten	14
1.4.2 <b>Niedergelassenenstudie:</b> Evaluierung der Akzeptanz eines telemedizinischen Konsils für niedergelassene Erstversorger durch AID-Experten	15
<b>2 Material und Methoden</b>	<b>17</b>
<b>2.1 Pilotstudie arcTmobile</b>	<b>17</b>
2.1.1 Studiendesign	17
2.1.2 Datenerhebung und Erhebungszeitpunkte	19
2.1.3 Auswertung	20
<b>2.2 Niedergelassenenstudie</b>	<b>23</b>
2.2.1 Studiendesign	23
2.2.2 Studienfragebogen	24
2.2.3 Auswertung	29
<b>3 Ergebnisse</b>	<b>35</b>
<b>3.1 Pilotstudie arcTmobile</b>	<b>35</b>
3.1.1 Beschreibung der Studienpopulation	35
3.1.2 Ergebnisse System Usability Scale (SUS)-Fragebogen	36
3.1.3 Ergebnisse Usability Satisfaction and Ease of Use (USE)-Fragebogen	38
<b>3.2 Niedergelassenen-Studie</b>	<b>42</b>
3.2.1 Demografie und Charakteristika der befragten niedergelassenen Ärzte	42
3.2.2 Einflussfaktoren der Haltung (Technology Acceptance Model)	44
3.2.3 Haltung der Niedergelassenen zur App arcTmobile	48

<b>4</b>	<b><i>Diskussion</i></b>	<b>50</b>
4.1	Akzeptanz, Machbarkeit und Nutzen von App-basiertem Krankheitsaktivitätsmonitoring	50
4.2	Machbarkeit und Akzeptanz von telemedizinischen Expertenkonsilen und Videosprechstunden	56
4.3	Einfluss der Covid-19 Pandemie auf die Entwicklung von telemedizinischen Versorgungsmodellen	61
4.4	Limitationen	63
4.5	Schlussfolgerung	65
<b>5</b>	<b><i>Zusammenfassung</i></b>	<b>66</b>
<b>6</b>	<b><i>Literaturverzeichnis</i></b>	<b>68</b>
<b>7</b>	<b><i>Erklärung zum Eigenanteil</i></b>	<b>83</b>
<b>8</b>	<b><i>Anhänge</i></b>	<b>84</b>
<b>9</b>	<b><i>Danksagung</i></b>	<b>85</b>
<b>10</b>	<b><i>Lebenslauf</i></b>	<b>86</b>

Aus Gründen der erleichterten Lesbarkeit wird in dieser Dissertation auf das Verwenden von gendergerechter Sprache verzichtet. Alle männlichen Formulierungen sprechen ausdrücklich gleichermaßen alle Geschlechter an.

## Abbildungsverzeichnis

Abbildung 1: Strukturmodell des TAM mit Darstellung der gerichteten Zusammenhänge zwischen den latenten Variablen.....	32
Abbildung 2: Gesamtmodell des TAM (Messmodell und Strukturmodell) mit Spezifizierung der latenten Variablen durch drei bzw. sechs Indikatorvariablen.....	33
Abbildung 3: Verteilung der Diagnosen innerhalb der Studienpopulation .....	36
Abbildung 4: Vergleich der Mittelwerte USE_App vs. USE_Papier.....	40
Abbildung 5: Einwohnerzahl des Praxisstandorts der Befragten, n=62 (100%).....	44
Abbildung 6: Auswertung der Kategorien des TAM.....	45
Abbildung 7: Ergebnisse des Mess- und Strukturmodells des TAM mit Darstellung der Indikatorvariablen (PU1-6, PEOU1-6, ATT1-3, ITU1-6) und des gerichteten Zusammenhangs zwischen den latenten Variablen (Wahrgenommene Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit, Haltung und Absicht zur Nutzung) .....	46
Abbildung 8: Mess- und Strukturmodell mit den Ergänzungen zum Einfluss des Alters des Befragten, der Anzahl der behandelten Patienten pro Quartal und der Einwohnerzahl des Praxisstandorts .....	47
Abbildung 9: Haltung der Niedergelassenen zur App arcTmobile.....	49

## Tabellenverzeichnis

Tabelle 1: Curved Grading Scale nach Sauro und Lewis (78) .....	22
Tabelle 2: Frage-Items der Kategorie Wahrgenommene Nützlichkeit (PU) .....	26
Tabelle 3: Frage-Items der Kategorie Benutzerfreundlichkeit (PEOU).....	27
Tabelle 4: Frage-Items der Kategorie Haltung (ATT) .....	27
Tabelle 5: Frage-Items der Kategorie Absicht zur Nutzung (ITU) .....	28
Tabelle 6: Frage-Items der Kategorie App .....	28
Tabelle 7: Demografie und Krankheitscharakteristika .....	36
Tabelle 8: Ergebnisse der System Usability Scale (SUS) <b>Fehler! Textmarke nicht definiert.</b>	
Tabelle 9: Auswertung des USE_P Fragebogens .....	39
Tabelle 10: Auswertung des USE_A Fragebogens .....	39
Tabelle 11: Ergebnisse Wilcoxon-Test zum Vergleich USE_A und USE_P.....	41
Tabelle 12: Statistik Wilcoxon-Test .....	41
Tabelle 13: Demografie und Charakteristika der niedergelassenen Ärzte .....	43

## Abkürzungsverzeichnis

ADDI .....	Autoinflammatory Disease Damage Index
AIDAI .....	autoinflammatory diseases activity index
arcT .....	Autoinflammatory Reference Center Tübingen
ARDIS.....	Arthritis and Rheumatism Database and Information System
ATT .....	Attitude
BSG .....	Blut-Senkungs-Geschwindigkeit
CAPS .....	Cryopyrin-assoziierte periodische Syndrome
CFI .....	Comparative Fit Index
CINCA .....	chronic infantile neurologic cutaneous articular syndrome
CPCS.....	Center for Pediatric Clinical Studies
CRF .....	Case Report Form
CRP .....	C-reaktives Protein
EMA.....	Europäische Arzneimittel-Agentur
FCAS .....	Familial Cold Autoinflammatory Syndrome
FDA .....	US Food and Drug Administration
FMF .....	Familiäres Mittelmeerfieber
HIDS .....	Hyper-Immunglobulin-D Syndrom
IL-1 .....	Interleukin-1
IMeRa .....	Integrated Mobile Health Research Platform
ITU .....	Intention to Use
KBV .....	Kassenärztliche Bundesvereinigung
MEVA .....	Mevalonic Aciduria
MKD.....	Mevalonatkinase Defizienz Syndrom



MWS.....	Muckle-Wells-Syndrom
NOMID.....	Neonatal onset multiinflammatory syndrome
NSAR.....	Nicht-steroidale Anti-Rheumatika
PEOU .....	Perceived Ease of Use
PFAPA.....	Periodic fever, aphthous stomatitis, pharyngitis, and cervical adenitis
PGA .....	Physician Global Assessment
PPGA.....	Patients/Parents Global Assessment
PRO .....	Patient-Reported-Outcome
PU.....	Perceived Usefulness
SAA .....	Serum Amyloid A
SEM.....	Structural Equation Modeling
SUS .....	System Usability Scale
T2T .....	Treat-to-Target
TAM .....	Technology Acceptance Model
TLI .....	Tucker-Lewis-Index
TRAPS.....	Tumornekrosefaktor-assoziiertes periodisches Syndrom
UE.....	Ease of Use
UL .....	Ease of Learning
US.....	Satisfaction
USE .....	Usefulness, Satisfaction and Ease of Use
USE_A.....	Usefulness Satisfaction and Ease of Use App-Version
USE_P.....	Usefulness Satisfaction and Ease of Use Fragebogen Papierversion
UU .....	Usefulness
WHO.....	Weltgesundheitsorganisation
WRMR.....	Weighted-Root-Mean-Square-Residual
ZNS .....	Zentrales Nervensystem

# 1 Einleitung

## 1.1 Autoinflammation und Autoinflammatorische Erkrankungen (AID)

### 1.1.1 Grundlagen und Historie autoinflammatorischer Erkrankungen

Autoinflammatorische Erkrankungen sind seltene, oft schwerwiegende angeborene Störungen des Immunsystems, verursacht durch Varianten in Genen des angeborenen Immunsystems (1, 2). Diese führen zu Überproduktion von pro-inflammatorischen Zytokinen, was in schubweise oder dauerhafte Entzündung von Gelenken, Augen, Haut und Schleimhäuten sowie Fieber resultieren kann (3). Bei sehr schweren Phänotypen können außerdem die Knochen, das zentrale Nervensystem (ZNS), das Innenohr oder die Nieren betroffen sein (4). Die Erstbeschreibung der monogenetischen autoinflammatorischen Erkrankungen erfolgte 1997 mit der Entdeckung der genetischen Ursache des Familiären Mittelmeerfiebers (FMF)(5). Vier Missense Varianten des *MEFV*-Gens, die bei Patienten mit dem klinischen Phänotyp von FMF detektiert wurden, konnten bei 85% der Träger-Chromosomen nachgewiesen werden. Dies führte zu der Annahme einer monogenetischen Ursache des FMF und in der Folge zur weiteren genetischen Ursachensuche bei Erkrankungen mit ähnlichen Merkmalen (5), die unter dem Begriff „autoinflammatorische Erkrankung“ (autoinflammatory disease, AID) zusammengefasst wurden (6). 1999 konnte gezeigt werden, dass Mutationen im *TNFRSF1A*-Gen mit dem klinischen Phänotyp des Tumornekrosefaktor-Rezeptor assoziierten periodischen Syndroms (TRAPS) einhergehen (6, 7). Im gleichen Jahr wurden Mutationen im *MVK*-Gen als ursächlich für das Hyper-IgD Syndrom (HIDS)/ Mevalonatkinase Defizienz Syndrom (MKD) beschrieben (8, 9). Gefolgt von der Entdeckung des *NLRP3*-Gens (auch bekannt als *CIAS1* oder *NALP3* Gen) 2001/2002, bei dem Varianten für die Cryopyrin-assoziierten periodischen Syndrome (CAPS) verantwortlich gemacht wurden (10-12). Die beschriebenen Gene kodieren für Sensoren von Inflammasomen. Inflammasome sind multimere Proteine, die auf eine Vielzahl von endogenen (damage associated molecular pattern; DAMPs) und infektiösen (pathogen associated molecular pattern; DAMPs) Stimuli mit Inflammation reagieren

können und eine Schlüsselrolle im angeborenen Immunsystem einnehmen (13). (14). Die unspezifische Aktivierung der Inflammasome resultiert in überschießende bzw. ungerichtete Entzündung (13). Bekannt ist, dass eine Vielzahl an Triggern Inflammasome aktivieren können.

### 1.1.2 Monogene und unklassifizierte AID

Monogene AID werden durch pathogene Varianten in einzelnen Genen verursacht (15). Je nach molekularem Pathomechanismus können AID verschiedenen Gruppen zugeordnet werden (16). Beispiele für die Einteilung von AID-Gruppen, basierend auf dem Pathomechanismus, sind die Inflammasomopathien oder Interleukin-1 (IL-1)-vermittelten AID. Zu den IL-1 vermittelten AID zählen beispielsweise FMF, CAPS, MKD und TRAPS. Bei den IL-1 vermittelten AID nimmt das IL-1 eine entscheidende Rolle im Pathomechanismus ein und trägt zu den klinischen und laborchemischen Charakteristika bei.

Das **FMF** ist mit 1-5:10.000 die häufigste monogene IL-1 vermittelte AID und wird autosomal rezessiv vererbt. Anlass zur Namensgebung war das historisch gehäufte Auftreten im östlichen Mittelmeerraum (Arabien, Türkei, Armenien) (17). Durch die zunehmende globale Mobilität und Migration ist das FMF mittlerweile weltweit beschrieben (18). Das verursachende *MEFV*-Gen kodiert für Pyrin, welches mit der Caspase-1 interagiert, die das Pro-IL-1 $\beta$  in das aktive IL-1 $\beta$  überführt (19). Die typische Klinik bei FMF-Patienten sind wiederkehrende 6- bis 72-stündige Fieberschübe mit Serositis, Bauchschmerzen, Brustschmerzen und Arthritis (3, 20). Eine gefürchtete Komplikation, insbesondere bei subklinischer Inflammation, ist die Entwicklung einer AA Amyloidose mit Niereninsuffizienz bis hin zum Nierenversagen (21). Die Diagnose kann mit Hilfe der Tel Hashomer (22) oder Yalcinkaya-Ozen (20) Kriterien gestellt werden. Genetische Analysen helfen bei der Risikoabwägung für Folgeschäden und können die Diagnose stützen (23).

**CAPS** subsummiert ein Krankheitsspektrum unterschiedlicher Schweregrade, verursacht durch Varianten im *NLRP3*-Gen. Seit 2018 spricht man daher auch

von „*NLRP3-AID*“ um den Zusammenhang zum verursachenden Gen zu verdeutlichen (24). Der milde Phänotyp beinhaltet das Familial Cold Autoinflammatory Syndrome (FCAS), die moderaten Phänotypen werden oft auch als Muckle-Wells-Syndrome (MWS) bezeichnet und die schweren Phänotypen umfassen das neonatal-onset multisystem inflammatory-Syndrome (NOMID)/ chronic infantile neurologic cutaneous articular syndrome (CINCA) (25). Die verursachenden *NLRP3*-Mutationen führen über die Aktivierung des *NLRP3*-Inflammasoms zu erhöhter IL-1 $\beta$ -Sekretion (26). Klinische Charakteristika sind Fatigue, Kopf- und Muskelschmerzen, Hautausschläge, muskuloskelettale Probleme und Augenentzündungen, sowie bei den moderaten und schweren Phänotypen auch Innenohrschwerhörigkeit oder ZNS-Beschwerden (25).

**MKD** ist eine seltene autosomal rezessive AID, verursacht durch eine loss-of-function Mutation im Mevalonatkinase-Gen (*MVK*). Folglich kommt es zu einer Überproduktion von Mevalonat mit Mangel an Isoprenoid-Endprodukten und defekter Protein-Prenylierung/Geranylgeranylierung. In der Folge kommt es zu einem veränderten Signalweg mit Überaktivierung des Pyrin-Inflammasoms und gesteigerter IL-1 $\beta$ -Produktion (27). Auch die MKD repräsentiert ein Krankheitsspektrum zu dem das mildere Krankheitsbild HIDS und das schwerere Krankheitsbild Mevalonazidurie (MVA) gezählt werden. Der Schweregrad hängt von der Schwere des Enzymdefekts bzw. der Enzymrest-Aktivität ab. Beim HIDS präsentieren sich die Erkrankten typischerweise mit Fieber über 4-7 Tage, gastrointestinalen Beschwerden, Hautausschlägen, Lymphadenopathie, Hepatosplenomegalie, Arthralgie und Myalgie. Bei der MVA kommt es zusätzlich zu Gedeihstörung, okulären Symptomen bis hin zur Erblindung und zu geistiger Retardierung und anderen neurologischen Symptomen wie zum Beispiel Ataxie und Krampfanfällen (28).

**TRAPS** wurde erstbeschrieben als „Hibernian Fever“ (29). Missense Mutationen im *TNFRS1A*-Gen führen zu fehlgefalteten Rezeptoren, welche im Zytoplasma akkumulieren, NF- $\kappa$ B Aktivierung induzieren und in der Folge zu erhöhter Produktion reaktiver Sauerstoffspezies und gestörter Autophagie führen (30). Das Phänotypen-Spektrum ist breit; schwere Verläufe finden sich

vor allem bei Mutationen, die Disulfid-Brücken im TNFR1 betreffen. Für TRAPS sind schubartige, oft febrile Verläufe über 1-3 Wochen charakteristisch, allerdings sind auch kontinuierliche Krankheitsverläufe ohne schubweise Exazerbation beschrieben. Neben Fieber, leiden Erkrankte an Gliederschmerzen, Bauchschmerzen (vor allem Kinder), wandernden makulopapulösen Hautausschlägen, periorbitalen Ödemen und Konjunktivitis (31). Kopfschmerzen und vergrößerte zervikale Lymphknoten zählen ebenfalls zu den häufigen Symptomen. Vorwiegend im Erwachsenenalter treten auch Myalgien und Arthralgien sowie wiederkehrende Episoden von Perikarditis, Peritonitis und Pleuritis auf (32, 33).

Periodic fever, aphthous stomatitis, pharyngitis, and cervical adenitis (**PFAPA**) ist eines der häufigsten Fiebersyndrome im Kindes- und Jugendalter mit unbekannter Genese (34). Genetische Untersuchungen zur Klärung der Pathogenese des PFAPA konnten bislang keinen eindeutig monogenen Ursprung identifizieren. In Zusammenschau der bisherigen Beschreibungen zu mit der Erkrankung assoziierten Genveränderungen, wird aktuell von einer multifaktoriellen oder polygenetischen Ursache ausgegangen (35). Charakteristisch für das PFAPA sind wiederkehrende Fieberepisoden mit einer Dauer von 3-6 Tagen, begleitet von oropharyngealen Symptomen und zervikaler Lymphadenitis ohne Diarrhö, Brustschmerzen, Hautausschlägen oder Arthritis (36). PFAPA hat in den meisten Fällen eine gute Prognose, in der Regel keine Folgeschäden und ist größtenteils im Jugendalter selbstlimitierend (37).

Neben den oben genannten, monogenen AID gibt es die Gruppe der **nicht klassifizierten/unklassifizierten AID**, deren klinische Präsentation auf eine autoinflammatorische Genese hinweist, für die bislang aber keine Varianten in einem bekannten Gen mit Pathomechanismen beschrieben werden konnten. Bei mindestens 40-60% der Patienten mit klinischem Phänotyp trifft dies zu (38). Next generation sequencing soll hier in Zukunft helfen, weitere ursächliche Gen-Varianten zu entdecken, um bislang unklassifizierte AID besser einordnen zu können (39).

### 1.1.3 Allgemeiner Diagnosealgorithmus bei Verdacht auf AID

Da es sich bei AID um seltene Erkrankungen handelt, kommt es oftmals zwischen Erstmanifestation und Diagnosestellung zu erheblichen Verzögerungen. In 2012 lag diese bei durchschnittlich 7,3 Jahren (40). Da die Diagnosestellung unabdingbar für eine Therapieeinleitung ist, ist es wichtig, die Awareness zu steigern. Eine konsequente und gezielte Aufklärungsarbeit über AID soll dabei helfen, die Zeit bis zur Diagnosestellung zu verkürzen. Wichtig ist dabei ein stufenweises Vorgehen. Im Zuge der Eigenanamnese sollten Beginn, Dauer und Periodizität der Symptome, sowie mögliche Trigger (z. B. Kälteexposition) erfragt werden. Auch ist das Erfassen eines möglichen Fiebersmusters und weiterer Krankheitssymptome wichtig. Ebenso ist das Erheben der Familienanamnese entscheidend (Ethnie, Konsanguinität, Hörverlust oder Nierenerkrankungen/-transplantationen in der Familie). Ergänzend zu einer gründlichen körperlichen Untersuchung, sollten im Schub und außerhalb eines Krankheitsschubs Entzündungsmarker wie C-reaktives Protein (CRP), Blut-Senkungs-Geschwindigkeit (BSG) und Serum-Amyloid-A (SAA), sowie Leber- und Nierenwerte bestimmt werden (41). Insbesondere für die IL-1 vermittelten AID sind dabei im Krankheitsschub hohe Entzündungszeichen typisch. Persistierend erhöhtes SAA und CRP außerhalb des Krankheitsschubs deuten auf subklinische Entzündung hin. Bei Vorliegen einer charakteristischen Anamnese und Untersuchung, sowie erhöhter laborchemischer Entzündung im Schub und ggf. auch außerhalb eines Krankheitsschubs, nach Ausschluss anderer Differentialdiagnosen, sollte der Erkrankte an ein Zentrum mit AID-Expertise zugewiesen werden. Da AID als systemische Erkrankung verschiedene Organsysteme betreffen können, können hier je nach Verdacht weitergehende organbezogene Zusatzuntersuchungen vorgenommen werden. Bei CAPS-Verdacht umfassen diese zum Beispiel eine Hochfrequenz-Audiometrie, eine ophthalmologische Untersuchung und ggf. eine Lumbalpunktion sowie kognitive Tests inklusive bildgebende Untersuchungen (42). Deuten die Symptommuster, die Laborparameter, sowie Ergebnisse der muskuloskelettalen, neurologischen und ophthalmologischen Zusatzuntersuchungen auf eine AID hin, kann eine

molekulargenetische Untersuchung eingeleitet werden. Die Kenntnis der genetischen Variante ermöglicht dabei die Schwere und den Verlauf der Erkrankungen, sowie das Risiko für Komplikationen und Organschädigungen abzuschätzen. Allgemein sollten vor Einleitung eines Gen-Panels, wie bereits oben angedeutet, die folgenden Kriterien erfüllt sein: laborchemisch nachgewiesene Entzündung (erhöhtes CRP, beschleunigte BSG oder erhöhtes SAA), hohe Wahrscheinlichkeit für das Vorliegen einer monogenen AID und ein plausibler Verdacht für ein Kandidaten-Gen (38). Die Genvarianten werden unterteilt in „pathogen“, „wahrscheinlich pathogen“, „unklare Signifikanz“, „wahrscheinlich benigne“ und „benigne“ (43).

Im Jahr 2019 veröffentlichten Gattorno et al. evidenzbasierte New-Eurofever/PRINTO-Klassifikationskriterien für IL-1 vermittelte AID mit pathogenen/wahrscheinlich pathogenen Varianten, Varianten unklarer Signifikanz oder fehlender genetischen Untersuchung (44). Klassifikationskriterien dienen der Auswahl von Probanden für klinische Studien. Für die Diagnostik sind sie nur bedingt geeignet, da sie aufgrund der hohen Spezifität der Kriterien teilweise zum Ausschluss von tatsächlich Betroffenen führen können. Im Vergleich dazu sind Diagnosekriterien oftmals weniger spezifisch, dafür aber sensitiver. Validierte Diagnosekriterien existieren für CAPS. Die CAPS-Diagnosekriterien ermöglichen eine Diagnosestellung bei Patienten mit charakteristischem Phänotyp, ohne dass krankheitsspezifische genetische Varianten vorliegen (z. B. Varianten unklarer Signifikanz) bzw. falls keine genetische Untersuchung durchgeführt werden kann (45). Eine CAPS Diagnose kann gestellt werden bei Vorliegen von erhöhten Entzündungsmarkern (CRP/SAA) plus  $\geq$  zwei von sechs CAPS-typischen Anzeichen/Symptomen, darunter (1) Urtikaria-ähnlicher Ausschlag, (2) kältebedingte Schübe, (3) Schallempfindungsschwerhörigkeit, (4) muskuloskelettale Symptome (Arthralgie/Arthritis/Myalgie), (5) chronische aseptische Meningitis und (6) Skelettanomalien (epiphysäre Überwucherung/frontaler Buckel) (45). Auch ermöglichen die FMF Diagnosekriterien von Yalcinkaya et al. die Diagnose eines FMF bei Vorliegen

von Fieber (axilläre Temperatur  $>38^{\circ}\text{C}$ , 6-72h Dauer,  $\geq 3$  Schübe), Bauchschmerzen (6-72h Dauer,  $\geq 3$  Schübe), Brustschmerzen (6-72h Dauer,  $\geq 3$  Schübe), Arthritis (6-72h Dauer,  $\geq 3$  Schübe, Oligoarthritis) und FMF in der Familienanamnese (20).

#### 1.1.4 Therapie der AIDs

Das therapeutische Management IL-1-vermittelter AID beinhaltet neben medikamentöser Therapie sowohl Physiotherapie und Hilfsmittel (z. B. Hörgeräte), als auch psychosoziale Unterstützung. Neben symptomatischen Medikamenten, wie Nicht-steroidalen Anti-Rheumatika (NSAR) und Glukokortikoiden, die vor allem im Krankheitsschub eingesetzt werden; gibt es verschiedene Medikamente, die selektiv inflammatorische Signalwege blockieren und eine gezielte Entzündungshemmung ermöglichen (42). Hierbei spielen in aktuellen Therapiekonzepten, insbesondere bei den IL-1 vermittelten AID, Colchicin und IL-1-Inhibitoren eine wichtige Rolle und werden im Rahmen der Treat-To-Target Strategie (T2T) angewendet (46-48). Grundlage der T2T Strategie ist das Definieren eines Behandlungsziels (zum Beispiel Remission oder niedrig stabile Krankheitsaktivität) und die regelmäßige Kontrolle der Zieleinhaltung mit standardisierten Methoden (46). Je nach Krankheitsaktivität und -verlauf und mit zunehmender Größe und Gewicht der pädiatrischen Patienten sind Dosisanpassungen häufig notwendig (49, 50).

**Colchicin** ist die First-line Therapie in der Behandlung vom FMF. Es konnten ein gutes Ansprechen und eine Risikoreduktion für die AA Amyloidose gezeigt werden (48). Je früher eine Colchicin-Therapie, die die Kontrolle der Krankheitsaktivität erreicht, gestartet wird, umso besser ist das Outcome (48). Auch in der Therapie des PFAPA spielt Colchicin, neben Kortikosteroiden, Cimetidin und Tonsillektomie, eine wichtige Rolle (51).

**IL-1 Inhibitoren** sind sichere und effektive Therapeutika zur Inflammationskontrolle bei CAPS, MKD und TRAPS (49, 52-55). Bei FMF-Patienten mit Colchicin-Intoleranz oder -Resistenz sind IL-1-Inhibitoren ebenfalls eine zugelassene und effektive Therapieoption (56). Aktuell zugelassen von der US Food and Drug Administration (FDA) zur Behandlung



von IL-1 vermittelten AID, sind der kurzwirksame IL-1-Rezeptor-Antagonist Anakinra (Verabreichung täglich subkutan), der vollständig humanisierte monoklonale Anti-IL-1 $\beta$ -Antikörper Canakinumab (Verabreichung 4-8 wöchentlich subkutan) und der rekombinant lösliche IL-1-Rezeptor Rilonacept (Verabreichung wöchentlich subkutan). Die Europäische Arzneimittel-Agentur (EMA) hat Anakinra und Canakinumab zugelassen.

#### 1.1.5 Krankheitsaktivitäts- und Damage-Monitoring

Zentraler Bestandteil der T2T Strategie ist ein regelmäßiges Krankheitsaktivitätsmonitoring. Nur so kann erfasst werden, ob die Krankheitsaktivität unter der aktuellen Therapie kontrolliert ist, eine Remission besteht und die Therapie unverändert fortgeführt werden kann. Oder ob Therapieanpassungen notwendig sind, damit das Therapieziel erreicht und Folgeschäden verhindert werden können. Durch das Krankheitsaktivitätsmonitoring können Folgeschäden durch unkontrollierte Inflammation vermieden oder rechtzeitig erkannt und eine personalisierte Therapieoptimierung ermöglicht werden (47). Das Krankheitsaktivitätsmonitoring beinhaltet einerseits regelmäßige körperliche Untersuchungen, beispielsweise zur Kontrolle von Wachstum und Entwicklung, muskuloskelettalen Auffälligkeiten oder Hautausschlägen. Zum anderen laborchemische Untersuchungen zur Kontrolle der Entzündungsmarker CRP oder SAA, um insbesondere subklinische Entzündung zu erfassen (41). Wiederkehrend erhöhte SAA oder S100 Proteine ohne klinische Symptomatik, deuten auf persistierende subklinische Entzündung hin, die therapeutisch nicht kontrolliert ist und die ein Risiko für Folgeschäden wie die AA-Amyloidose darstellt (57). Neben den laborchemischen Kontrollen ist es wichtig, dass die Krankheitsaktivität durch die Patienten in Beschwerdetagebüchern erfasst wird. Für die IL-1 vermittelten AID ist als Beschwerdetagebuch der Autoinflammatory Diseases Activity Index (AIDAI) ein validiertes Instrument zur standardisierten Erfassung der Krankheitsaktivität (58). Der AIDAI enthält 13 Items zu allgemeinen Symptomen, spezifischen AID-Symptomen, Fieber  $>38^{\circ}\text{C}$  und den Bedarf an NSARs (58). Je Item kann ein Wert von 0 (nicht zutreffend) oder 1

(zutreffend) vergeben werden, daraus ergibt sich ein maximaler täglicher Wert von 12 und ein monatlicher Score zwischen 0 und 372 (58). Der Cut-off für die Bezeichnung „aktive AID“ liegt bei einem monatlichen Score von 9 (58). Im Autoinflammatory Reference Center Tübingen (arcT) wird als Beschwerdetagebuch zur Erfassung der Krankheitsaktivität das Symptomtagebuch „myAIDAI“ eingesetzt (siehe Anhang 1). Dieses Symptomtagebuch leitet sich von einem Vorläufermodell des AIDAI ab (59). Im „myAIDAI“ erfolgt allerdings im Vergleich zu der Vorläuferfassung eine Graduierung der Symptomatik von 0 (keine Beschwerden), 1 (milde) 2 (moderate) bis 3 (schwere Beschwerden). Die Items zur Beschwerdegraduierung werden außerdem noch ergänzt um Fragen zur Schulfehlzeit, Beeinträchtigung des Soziallebens und einer Müdigkeitsskala. Um mögliche Krankheitsschäden durch die AID oder die Therapie frühzeitig zu erfassen, wird der Autoinflammatory Disease Damage Index (ADDI) eingesetzt (60). Erfasst werden Schädigungen in den Kategorien Reproduktion, Niere, Entwicklung, Schleimhaut, Neurologie, Hören, Sehen und Muskuloskelettales System (60). Eine Schädigung wird definiert als irreversible Veränderung, die seit mindestens 6 Monaten persistiert (60). Nach Ter Haar et al. sind die wichtigsten Schädigungen AA-Amyloidose, Gelenkschädigung, Sehverlust, neurologische Schäden und Nierenversagen (60).

#### 1.1.6 Psychosoziale Folgen und heutige Herausforderungen im Management von AIDs

Patienten mit AID leiden, neben der Grunderkrankung und den damit verbundenen Folgeschäden, auch unter psychosozialen Folgen (61). Durch die Seltenheit und Nicht-Sichtbarkeit der Erkrankungen, kommt es oft zu Mangel an Verständnis und Mitgefühl im sozialen Umfeld (61). Ist die AID therapeutisch nicht gut eingestellt, kommt es durch die unkontrollierte Krankheitsaktivität zu Fehltagen in der Schule/im Beruf, schlechteren Schulnoten und zu einem steigenden Risiko für sozioökonomische Benachteiligung bis hin zum Jobverlust. Auch kommt es psychosozial zu Isolation und Selbstzweifeln (61). Eine weitere psychosoziale Belastung entsteht durch häufige Arztbesuche zu

oft weit entfernten spezialisierten Zentren und die Notwendigkeit zum regelmäßigen Monitoring und Dokumentieren der Krankheitsaktivität. Im heutigen digitalen Zeitalter kommt hier die Frage nach neuen digitalen Lösungen zur Verbesserung des AID-Managements auf.

## 1.2 eHealth, Telemedizin und mHealth

### 1.2.1 Allgemeine Begriffserklärung

Nach Definition der Weltgesundheitsorganisation (WHO) von 2005 bezeichnet der Begriff **eHealth** (electronic health) den Einsatz von Informations- und Kommunikationstechnologien in allen gesundheitsbezogenen Bereichen (62). Dazu gehören sowohl die Gesundheitsversorgung mit Telekonsilen und Telemonitoring, sowie administrative Prozesse wie die elektronische Patientenakte, der elektronische Arztausweis oder das elektronische Rezept. Außerdem der Bereich der Prävention mit elektronischen Assistenzsystemen oder Coaching und die Gebiete Forschung und Lehre mit beispielsweise informations- und kommunikationstechnologisch gestützter Genomforschung oder digitale medizinische Lernplattformen (63). Der Begriff **Telemedizin** wurde 2015 von der AG Telemedizin der Bundesärztekammer Deutschland folgendermaßen definiert: „Telemedizin ist ein Sammelbegriff für verschiedenartige ärztliche Versorgungskonzepte, die als Gemeinsamkeit den prinzipiellen Ansatz aufweisen, dass medizinische Leistungen der Gesundheitsversorgung der Bevölkerung in den Bereichen Diagnostik, Therapie und Rehabilitation sowie bei der ärztlichen Entscheidungsberatung über räumliche Entfernungen (oder zeitlichen Versatz) hinweg erbracht werden. Hierbei werden Informations- und Kommunikationstechnologien eingesetzt.“ (63) Unter dem Begriff **mHealth** versteht man die Erweiterung von eHealth um eine mobile Komponente, also eine durch Mobilgeräte (Smartphones, Smartwatches etc.) unterstützte Gesundheitsversorgung (64).

### 1.2.2 Krankheitsmonitoring via App

Wichtiger Bestandteil von mHealth ist das App-basierte Krankheitsmonitoring über das private digitale Endgerät des Patienten. Man unterscheidet zwischen Apps mit Patient-Reported-Outcome (PRO), in denen der Patient seine Symptome selbst dokumentiert und Wearables, also unmittelbar am Körper getragene Sensoren, welche Puls, Blutdruck, Schrittzahl etc. messen und die Daten in der App hinterlegen (65). Neuere Technologien gehen sogar so weit, Gelenkschwellungen mit der Handykamera oder Handkraftmessungen mittels App zu ermitteln (66, 67). Neben der Symptombdokumentation sind Funktionen wie die Erinnerung zur Medikamenteneinnahme oder Möglichkeiten der Patientenedukation von Bedeutung (68, 69). Eine weitere Option von Gesundheits-Apps ist die zusätzliche Kommunikationsmöglichkeit mit dem Arzt über Chat oder Anruf, beispielsweise bei akuten Fragestellungen, wenn ein Besuch in der Notaufnahme vermieden werden soll (70).

### 1.2.3 Telemedizinische Sprechstunden und Konsile

Unter telemedizinischen Sprechstunden versteht man sowohl telefonische als auch Videoanruf-basierte Visiten, die den klassischen Vor-Ort-Arztbesuch ersetzen und/oder ergänzen können. Ein telefonischer Kontakt kann sehr zeiteffizient sein, um beispielsweise Laborwerte oder Medikamenten-Dosisanpassungen zu besprechen (65). Ein Video-Anruf hat den Vorteil, dass Arzt und Patient sich, wenn auch nur virtuell, sehen können und ein genauerer klinischer Eindruck sowie ein persönlicherer Kontakt möglich ist (65, 71). Telemedizinische Konsile können im klinischen Management helfen, wenn Expertenwissen von extern gefragt ist. Über einen Video-Anruf kann ein entsprechender Spezialist hinzugeschaltet werden und so spezielle klinische Fragestellungen über große Distanzen hinweg beantwortet werden (72).

### 1.2.4 Telemedizin unter dem Einfluss der COVID-19 Pandemie

Im Rahmen der COVID-19 (Coronavirus-Disease 2019) Pandemie und den damit einhergehenden Kontakt- und Mobilitätsbeschränkungen, wurden telemedizinische Konzepte innerhalb kürzester Zeit gefragt und gefördert. Nach Angaben der Kassenärztlichen Bundesvereinigung (KBV) sei die Zahl an

Videosprechstunden rasant gestiegen, allein im zweiten Quartal 2020 konsultierten 1,2 Millionen Mal Patienten ihren Arzt via Video (73).

### 1.3 Benutzererfahrung und Technologieakzeptanz

#### 1.3.1 Forschung im Bereich von Technologie-Benutzererfahrungen

Mit der rasanten Technologie-Entwicklung geht auch die Forschung zur Benutzererfahrung von Apps und telemedizinischen Modellen einher. Nur wenige der zahlreichen Gesundheits-Apps, die aktuell verfügbar sind, wurden vor ihrer Veröffentlichung systematisch auf ihre Benutzerfreundlichkeit und Nützlichkeit hin untersucht (74). Das liegt zum einen am großen Aufwand und zum anderen an einem Mangel an geeigneten validierten Messinstrumenten zur Bewertung von Benutzerfreundlichkeit und Nützlichkeit von mHealth-Apps (75). Die **System Usability Scale (SUS)** (76) ist ein häufig verwendetes Messinstrument zur Quantifizierung von Software- und Hardware-Produkten und eignet sich, wenn auch nicht ursprünglich dafür ausgelegt, sehr gut zur Bewertung von Nützlichkeit und Benutzerfreundlichkeit von mHealth-Apps (77). Ein zweites validiertes Messinstrument ist der **Usefulness, Satisfaction and Ease of Use (USE)** Fragebogen, der mit 30 Items die subjektive Nützlichkeit eines Produkts oder Services misst und sich damit auch zur Evaluation einer mHealth-App eignet (78, 79).

#### 1.3.2 Forschung und Methoden zur Evaluation von Technologie-Akzeptanz

Neben der Evaluation von Benutzerfreundlichkeit und Nützlichkeit ist vor allem die Akzeptanz ein entscheidender Faktor, um den Erfolg einer telemedizinischen Anwendung vorherzusagen und zu erhalten. Nur wenn der Anwender von der Nützlichkeit des telemedizinischen Modells überzeugt ist, wird es im klinischen Alltag Bestand haben (80). Die Covid-19 Pandemie und der damit einhergehende Zuwachs an telemedizinischen Modellen hat die Frage aufgeworfen, wie groß die Akzeptanz und Bereitschaft zur Nutzung von Telemedizin unter Patienten und vor allem niedergelassenen Ärzten überhaupt ist (81). Um die Akzeptanz zu quantifizieren, gibt es Messinstrumente wie das

**Technology Acceptance Model (TAM)**. Das TAM ermöglicht die Modellierung der Faktoren, die zur Akzeptanz von Technologien beitragen; wie beispielsweise „wahrgenommene Nützlichkeit“ oder „Benutzerfreundlichkeit“ (82).

#### 1.4 Ziel und Fragestellung der Dissertation

Die zunehmende Technisierung der Medizin in den letzten Jahrzehnten hat viele Möglichkeiten zur verbesserten und effektiveren Patientenversorgung eröffnet. So konnte beispielsweise gezeigt werden, dass Apps insbesondere bei chronisch Kranken die Compliance beim Krankheitsaktivitätsmonitoring verbessern und telemedizinische Sprechstunden die Verfügbarkeit von ärztlicher Betreuung für Patienten mit seltenen Erkrankungen und in ländlichen Regionen lebenden Patienten verbessern können (81, 83).

Im Bereich des Krankheitsmanagements von AID gibt es bislang keine Erfahrung mit telemedizinischen Tools. Projekte mit App-basierter Symptombdokumentation und telemedizinischen Sprechstunden bei rheumatologischen Erkrankungen sind in den letzten Jahren aber immer häufiger publiziert worden (84-87). Im Bereich der AID fehlt es allerdings noch an Daten zur Nutzerfreundlichkeit und Akzeptanz von Krankheitsaktivitätsmonitoring-Apps.

Auch Konzepte zu telemedizinischen Sprechstunden und Expertenkonsilen im Bereich der AID sucht man bislang vergeblich, obwohl insbesondere bei AID nur wenige spezialisierte Zentren in Deutschland verfügbar sind, was für AID-Patienten zu langen Anreisen mit sozioökonomischen Folgen sowie gesundheitsgefährdenden Verzögerungen in der Diagnosestellung und Anpassung der Therapiemaßnahmen führt.

Daher verfolgt die vorliegende Dissertation die Untersuchung von mHealth und telemedizinischen Sprechstunden im Bereich der AID, untergliedert in zwei Teilprojekten. Teilprojekt 1 (Pilotstudie arcTmobile) befasst sich mit der Evaluierung der Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit und Akzeptanz einer App zum Krankheitsaktivitätsmonitoring für AID-Patienten. Teilprojekt 2

(Niedergelassenenstudie) evaluiert die Akzeptanz eines telemedizinischen Konsils für niedergelassene Erstversorger durch AID-Experten.

Die Arbeit soll so die Digitalisierung/Technisierung im Bereich der AID vorantreiben und helfen, Kernaspekte digitaler Ansätze im Bereich der AID nützlicher und benutzerfreundlicher herauszuarbeiten, um in Zukunft die Versorgung und das personalisierte Krankheits-Management von AID-Patienten zu verbessern.

#### 1.4.1 **Pilotstudie *arcTmobile***: Evaluierung der Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit und Akzeptanz einer App zum Krankheitsaktivitätsmonitoring für AID-Patienten

Die tägliche Dokumentation der Krankheitsaktivität in Beschwerdetagebüchern wie dem AIDAI oder myAIDAI durch den Patienten, ist für das personalisierte AID-Management unabdingbar. Einerseits kann so die auf die Entzündungsreaktion abgestimmte Präparate- oder Dosisanpassung erfolgen, zum anderen kann der Patient im Sinne des Patient-Empowerments lernen, Trigger zu vermeiden und mögliche Veränderungen und Warnzeichen des Körpers besser zu erkennen. Die Dokumentation sollte am besten täglich erfolgen, auch auf Klassenfahrt oder im Urlaub – was das Risiko birgt, dass das Papier-Tagebuch vergessen wird oder verloren geht. Auch muss das Beschwerdetagebuch zu Arztbesuchen mitgebracht werden; fehlt es in der Konsultation, bedeutet dies Mehraufwand auf Patienten- und Arztseite, da erst mit nachgereichtem Beschwerdetagebuch eine Therapieentscheid getroffen werden kann. Da mittlerweile der Gebrauch von Smartphones im Alltag, vor allem bei Jugendlichen, weit verbreitet ist, wurde basierend auf dem Papier-beschwerdetagebuch *myAIDAI* eine mHealth-Pilot-App „*arcTmobile*“ am arcT entwickelt, um das Krankheitsaktivitätsmonitoring attraktiver zu gestalten und zu erleichtern. Die nahezu dauerhafte Verfügbarkeit eines Smartphones, könnte ein App-basiertes Krankheitsaktivitätsmonitoring in der mHealth-Pilot-App „*arcTmobile*“ auch jederzeit von unterwegs ermöglichen. Auch könnte dadurch verhindert werden, dass das Papier-Beschwerdetagebuch verlegt wird/verloren geht bzw. beim Arztbesuch vergessen wird. Da aber bei mHealth-Apps bekannt

ist, dass die Anwendung im Alltag sehr stark von der vom Nutzer empfundenen Nützlichkeit und Benutzerfreundlichkeit abhängt, untersuchte die vorliegende Dissertation die neu entwickelte mHealth-Pilot-App „*arcTmobile*“ im Vergleich zum bisher im klinischen Alltag etablierten Papier-basierten Beschwerdetagebuch *myAIDA* auf Machbarkeit, Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit und Akzeptanz bei Patienten des arcT. Dies soll dazu beitragen, die konfigurierte mHealth-Pilot-App „*arcTmobile*“ an die Bedürfnisse der Patienten anzupassen, um so ein als nützlich und benutzerfreundlich empfundenes und akzeptiertes App-basiertes Krankheitsaktivitätsmonitoring im AID-Management zu etablieren, welches das AID-Management patientenfreundlich und optimal unterstützt.

#### 1.4.2 **Niedergelassenenstudie:** Evaluierung der Akzeptanz eines telemedizinischen Konsils für niedergelassene Erstversorger durch AID-Experten

Die Seltenheit der AIDs und das kontinuierlich wachsende Spektrum der noch recht „jungen“ Krankheitsentität führen dazu, dass wenige Haus- und Kinderärzte mit den Diagnose- und Therapie-Algorithmen sowie dem Monitoring von AIDs vertraut sind. In der Folge haben viele AID-Patienten weite Anreisen zu den wenigen spezialisierten AID-Zentren in Deutschland. Das führt zu gesundheitlicher Chancenungleichheit, beispielsweise durch Arbeitszeitausfälle der Eltern, hohe Anreisekosten und Wartezeiten und erschwert die optimale AID-Versorgung vor allem in Akutsituationen. Ein telemedizinisches Modell mit Videosprechstunden von AID-Experten für Hausärzte und niedergelassene Pädiater könnte die Versorgung nachhaltig verbessern. AID-Experten könnten via Video in die heimatnahe Sprechstunde zugeschaltet werden, dem Patienten weite Anreisen ersparen und die niedergelassenen Kollegen im AID-Management unterstützen. Inwiefern die betreuenden Haus- und niedergelassenen Kinderärzte der AID-Patienten des arcT einem solchen telemedizinischen Modell gegenüber aufgeschlossen wären, untersucht diese Dissertation im Rahmen der „Niedergelassenenstudie“. Primäres Ziel war es, die Akzeptanz und Bereitschaft für Expertenkonsile in Form von



telemedizinischen Sprechstunden in einer prospektiven Umfrage zu evaluieren und den Einfluss von Nützlichkeit und Benutzerfreundlichkeit auf die Haltung und Absicht zur Verwendung von telemedizinischen Sprechstunden mit Hilfe des TAMs zu untersuchen. Sekundäres Ziel war es, Einflussfaktoren auf die Haltung in Hinblick auf die Covid-19-Pandemie, das Alter der Befragten und den Praxisstandort zu untersuchen.

## 2 Material und Methoden

### 2.1 Pilotstudie *arcTmobile*

#### 2.1.1 Studiendesign

In dieser prospektiven, monozentrischen Pilotstudie wurde das App-basierte Krankheitsaktivitätsmonitoring über die web-basierte mHealth-Pilot-App „*arcTmobile*“ im Vergleich zum Papier-basierten Beschwerdetagebuch *myAIDA* zwischen Februar und Mai 2020 bei Patienten mit AID untersucht. Eingeschlossen wurden Kinder ab dem 2. Lebensjahr, Jugendliche und Erwachsene, die sich zum Zeitpunkt der Studie in ärztlicher Behandlung am arcT befanden, (i) die Diagnose FMF, MKD, TRAPS, CAPS oder unklassifizierte AID hatten und (ii) über einen Zugang zu einem internetfähigen Endgerät (Smartphone, Tablet) verfügten. Ausschlusskriterien waren (i) kein sicherer Zugang zum Internet und (ii) Sprachbarrieren (Verfügbarkeit der App nur in deutscher Sprache). Der Prüfplan wurde der Ethikkommission der medizinischen Fakultät Tübingen zur Beratung vorgelegt und genehmigt (625/2019B01).

Die Rekrutierung der Patienten erfolgte über die Autoinflammatorische Sprechstunde des arcT. Geeignete Patienten wurden auf eine mögliche Teilnahme an der Studie angesprochen und bei Interesse mündlich und schriftlich aufgeklärt. Mit Unterzeichnung des Studieneinverständnisses und der Zustimmung zum Datentransfer nach dem Datenschutzkonzept IMeRa (siehe Anhang 5), wurden die Patienten in die Studie eingeschlossen. Den eingeschlossenen Studienteilnehmern wurde eine Studien-ID zugewiesen, welche in einem Screening-Enrollment-log hinterlegt und in einem nur für ausgewähltes Studienpersonal zugänglichen Büro im Trial Master File aufbewahrt wurde. Darüber hinaus erhielten die Studienteilnehmer einen personalisierten Zugang, sowie eine Einführung in die Nutzung der webbasierten Pilot-App *arcTmobile* auf ihren privaten Smartphones und Tablets.

Zum **Studieneinschluss (Zeitpunkt t0)** erhielten die Studienteilnehmer einen mit der Studien-ID verschlüsselten Usefulness, Satisfaction and Ease of Use (USE)-Fragebogen zur Evaluation des Papier-Beschwerdetagebuchs *myAIDA*. Dieser wurde direkt vor Ort ausgefüllt. Außerdem wurden die Basisdaten der Patienten in einer verschlüsselten Case Report Form (CRF) erhoben. In den folgenden drei Monaten dokumentierten alle Patienten ihre Beschwerden parallel in der App und im Papier-Beschwerdetagebuch *myAIDA*. Für Kinder bis zum 14. Lebensjahr erfolgte die Symptom-Dokumentation in der App *arcTmobile* bzw. im Papier-Beschwerdetagebuch *myAIDA* durch die Erziehungsberechtigten. **Nach drei Monaten (Studienzeitpunkt t1)** erhielten die Studienteilnehmer zwei verschlüsselte Fragebögen, den USE-Fragebogen und den System Usability Scale (SUS)-Fragebogen zur Evaluation der web-basierten App *arcTmobile* mit der Bitte um postalische Rücksendung. Drei Wochen nach Zeitpunkt t1 wurden die Studienteilnehmer telefonisch oder schriftlich per Mail an die Rücksendung der Fragebögen erinnert, deren Fragebogen noch nicht eingegangen war.

Die erhobenen Daten wurden verschlüsselt in ein digitales Datenblatt zur Auswertung übertragen und auf einem passwortgesicherten Rechner des arcT am Universitätsklinikum gespeichert. Die Verarbeitung und Speicherung sämtlicher studienbezogener Daten erfolgte nach der EU-Datenschutz-Grundverordnung. Sowohl die Papier-Fragebögen als auch das elektronische Datenblatt werden getrennt vom Screening Enrolment-log für 10 Jahre in einem zugangsbeschränkten Schrank bzw. passwortgesicherten Laufwerk des arcT archiviert.

## 2.1.2 Datenerhebung und Erhebungszeitpunkte

### 2.1.2.1 Studienpopulation

Zur Beschreibung der Studienpopulation wurden das Alter des Patienten (MM/JJ), Geschlecht, Diagnose, Patients/Parents Global Assessment (PPGA)/Physician Global Assessment (PGA) Folgeschäden der AID, Komorbiditäten, aktuelle Infekt-Anamnese und aktuelle Therapie im CRF zum Zeitpunkt t0 erhoben.

### 2.1.2.2 Usefulness Satisfaction and Ease of Use (USE) Fragebogen

Der USE-Fragebogen misst die subjektive Benutzerfreundlichkeit eines technischen Produkts oder Services. Die 30 Items sind in vier Kategorien unterteilt: Nützlichkeit (Usefulness [UU]), Benutzerfreundlichkeit (Ease of Use [UE]), Erlernfreundlichkeit (Ease of Learning [UL]) und Zufriedenheit (Satisfaction [US]). Jede Kategorie beinhaltet unterschiedlich viele Frage-Items: die Kategorie Nützlichkeit besteht aus acht Frage-Items (UU 1-8), die Kategorie Benutzerfreundlichkeit aus elf (UE 1-11), Erlernfreundlichkeit aus vier (UL 1-4) und Zufriedenheit aus sieben Items (US 1-7) (siehe Anhang 2 und 3). Die Bewertung der einzelnen Items erfolgt mittels einer 7-Punkte-Likert-Skala mit den Endpunkten 0 (gar nicht einverstanden) und 6 (sehr einverstanden). Der USE kann auf verschiedene Szenarien der Nutzbarkeitsbewertung angewendet werden. In dieser Pilotstudie wurde er für den direkten Vergleich der Benutzerfreundlichkeit und Alltagstauglichkeit von App *arcTmobile* und Papier-Beschwerdetagebuch *myAIDAI* verwendet. Da der USE-Fragebogen nur in der Originalsprache Englisch verfügbar ist, wurde dieser im Rahmen der Studie ins Deutsche übersetzt. Das in der Originalversion enthaltene „it“ wurde in Version 1 durch „der Papier *myAIDAI*“ und in Version 2 durch „die App *arcTmobile*“ ersetzt. Das vierte Item der Kategorie Benutzerfreundlichkeit (UE4) „Es braucht nur wenige Schritte, um es erfolgreich nutzen zu können.“ wurde aus Gründen der fehlenden Sinnhaftigkeit der Aussage in Bezug auf ein Beschwerdetagebuch in Papierform (*myAIDAI* Papier) in Version 1 entfernt. Zum Zeitpunkt t0 wurde Version 1 des USE-Fragebogens von den Studienteilnehmern zur Evaluation des Papier-Beschwerdetagebuchs *myAIDAI*

ausgefüllt (USE\_P). Zum Zeitpunkt t1, nach 3-monatiger Testung der App, erfolgte die Evaluation der digitalen Version des *myAIDA*s als Pilot-App *arcTmobile* mit Version 2 des USE-Fragebogens (USE\_A)..

#### 2.1.2.3 *System Usability Scale (SUS) Fragebogen*

Die System-Gebrauchstauglichkeit der App *arcTmobile* wurde mittels des Fragebogens System Usability Scale (SUS) (siehe Anhang 4) bestimmt. Der validierte Fragebogen dient als „quick and dirty“ Methode zur Bestimmung der Gebrauchstauglichkeit eines technischen Systems. Der Fragebogen besteht aus zehn Fragen (F1-F10). Zur Beantwortung der Fragen wird eine Endpunktbestimmte 5-Punkte Likert-Skala verwendet, wobei 1 = „stimme überhaupt nicht zu“ und 5 = „stimme voll zu“ gilt. Der Fragebogen ist in der Originalsprache Englisch frei verfügbar und wurde für die Pilotstudie ins Deutsche übersetzt.

#### 2.1.2.4 *Freitext-Fragen der Patienten zur App*

Im Anschluss an die Beantwortung des USE-Fragebogens hatten die Studienteilnehmenden zu Zeitpunkt t0 und t1 außerdem die Möglichkeit, in einem Freitext Nachteile („Bitte notiere/notieren Sie Sachen, die Sie am meisten gestört haben/die Ihnen fehlen.“) und Vorteile („Bitte notiere/notieren Sie die Sachen, die Sie gut bei dem Papier *myAIDA*/der *arcTmobile* App finden.“) der App und des Papier-Beschwerdetagebuchs anzugeben. Diese Antworten sollen später der gezielten Verbesserung und Weiterentwicklung des App-basierten Krankheitsaktivitätsmonitorings dienen.

#### 2.1.3 Auswertung

Die Auswertung der erhobenen Daten erfolgte mit Microsoft Excel 16.52 und IBM SPSS Statistics 26.

##### 2.1.3.1 *Auswertung USE*

Der retournierte USE-Fragebogen wurde in der Analyse berücksichtigt, wenn mindestens 25/30 Fragen vollständig und eindeutig beantwortet wurden. Die Auswertung des USE-Fragebogens erfolgte nach den vier Kategorien getrennt.

Jedes Item wurde von den Studienteilnehmern mit einem Wert zwischen 1 (gar keine Zustimmung) und 7 (sehr große Zustimmung) bewertet. Aus den Bewertungen der Items einer Kategorie wurden Mittelwert und Standardabweichung bestimmt. Diese Werte der Version 1, den *myAIDA*-Papier-Beschwerdetagebuch und der Version 2, die App *arcTmobile* betreffend, wurden anschließend miteinander verglichen. Mittels eines Wilcoxon-Tests wurde ermittelt, ob sich die zentralen Tendenzen der Mittelwerte von Version 1 (USE\_P) und Version 2 (USE\_A) signifikant unterscheiden.

### 2.1.3.2 Auswertung SUS

Der retournierte SUS wurde in der Analyse berücksichtigt, wenn 10/10 Fragen vollständig und eindeutig beantwortet wurden. Zur standardisierten Auswertung des SUS wurden die rohen Item-Scores der 5-Punkte-Likert-Skala in einen bereinigten Score konvertiert. Dazu wurden die rohen Scores der Items, die mit geraden Zahlen nummeriert waren (negativ formulierte Aussagen) von 5 subtrahiert ( $5 - \text{Score roh}$ ). Von den Items, die mit ungeraden Zahlen nummeriert waren (positiv formulierte Aussagen) wurde 1 subtrahiert ( $\text{Score roh} - 1$ ). Somit gilt beim bereinigten Score, für alle 10 Items 0 als die niedrigste und 4 als die höchste mögliche Bewertung. Im nächsten Schritt wurden die bereinigten Scores aller 10 Items addiert und mit 2,5 multipliziert, um die Standard System Usability Scale mit dem Wertebereich 0-100 zu erhalten (76).

$$\text{SUS} = 2,5 \times ((\text{SUS01}-1)+(\text{5}-\text{SUS02})+(\text{SUS03}-1)+(\text{5}-\text{SUS04})+(\text{SUS05}-1)+(\text{5}-\text{SUS06})+(\text{SUS07}-1) \\ +(\text{5}-\text{SUS08})+(\text{SUS09}-1)+(\text{5}-\text{SUS10}))$$

oder

$$\text{SUS} = 2,5 \times (20 + \text{sum}(\text{SUS01}, \text{SUS03}, \text{SUS05}, \text{SUS07}, \text{SUS09}) - \text{sum}(\text{SUS02}, \text{SUS04}, \text{SUS06}, \text{SUS08}, \text{SUS10})) \quad (88)$$

Zur Interpretation des ermittelten Scores dient die curved grading scale von Sauro und Lewis siehe [Tabelle 1](#) (89, 90). Aus der logarithmischen Transformation der reflektierten Werte aus über 446 Studien und über 5000 beantworteten SUS-Items haben die Autoren die Verteilung der Werte

normalisiert und Perzentilenränge berechnet. Zur besseren Veranschaulichung sind neben den Perzentilenrängen noch zusätzlich die entsprechenden amerikanischen Schulnoten von A+ (entspricht Perzentilenrang 96-100) bis F (entspricht Perzentilenrang 0-14) aufgeführt. Ein SUS-Wert über 68 gilt als überdurchschnittlich.

*Tabelle 1: Curved Grading Scale nach Sauro und Lewis (88)*

SUS Score	Note	Perzentilenrange
84,1-100	A+	96-100
80,8-84,0	A	90-95
78,9-80,7	A-	85-89
77,2-78,8	B+	80-84
74,1-77,1	B	70-79
72,6-74,0	B-	65-69
71,1-72,5	C+	60-64
65,0-71,0	C	41-59
62,7-64,9	C-	35-40
51,7-62,6	D	15-34
0,0-51,6	F	0-14

Abkürzungen: SUS System Usability Scale

## 2.2 Niedergelassenenstudie

### 2.2.1 Studiendesign

Die prospektive Befragung von Kinder- und Hausärzten zu ihrer Haltung und Absicht telemedizinische Sprechstunden mit AID-Experten zu nutzen, um eine optimierte wohnortnahe Versorgung von Patienten mit AID zu ermöglichen, wurde von Oktober bis Dezember 2020 durchgeführt. Eingeschlossen wurden Kinder- und Hausärzte, die (i) AID-Patienten mit den Diagnosen CAPS, TRAPS, MKD, FMF oder PFAPA betreuen und (ii) deren AID-Patienten seit Januar 2019 mindestens einen Eintrag im klinikinternen Dokumentationssystem Arthritis and Rheumatism Database and Information System (ARDIS) am arcT hatten. Ausgeschlossen wurden Kinder- und Hausärzte (i) ohne aktuell vorliegende Kontaktadresse oder (ii) geplantem Ruhestand innerhalb der nächsten 6 Monate. Alle geeigneten Kinder- und Hausärzte wurden postalisch kontaktiert und in einem Anschreiben über Hintergrund und Zweck der Befragung informiert. Zeitgleich wurde ein Studienfragebogen mitgesendet, der im Vorfeld mit einer personalisierten Studien-ID für jeden Angeschriebenen kenntlich gemacht wurde. Diese, jedem Kinder- und Hausarzt zugewiesene Studien-ID, wurde in einem Screening-Enrolment-log hinterlegt und in einem nur für ausgewähltes Studienpersonal zugänglichen Büro im Trial Master File aufbewahrt. Der Prüfplan wurde der Ethikkommission der medizinischen Fakultät Tübingen zur Beratung vorgelegt und genehmigt (580/2020BO).

Der Versand der Studienfragebögen inklusive Anschreiben und frankiertem Rückumschlag erfolgte zum **Zeitpunkt t0**. Vier Wochen nach dem ersten eingegangenen Fragebogen (**Zeitpunkt t1**) erfolgte eine telefonische oder schriftliche Erinnerung per Mail an alle Kinder- und Hausärzte, welche bis dato noch keinen Fragebogen zurückgesendet hatten. Vier Wochen nach Eingang des ersten Fragebogens, basierend auf der Erinnerung (**Zeitpunkt t2**) erfolgte ein zweiter Reminder. Alle eingegangenen Papierfragebögen wurden in ein digitales Datenblatt übertragen und über die Studien-ID verschlüsselt, auf einem passwortgesicherten Rechner des arcT am Universitätsklinikum



gespeichert und ausgewertet. Die Verarbeitung und Speicherung sämtlicher studienbezogener Daten erfolgte nach der EU-Datenschutz-Grundverordnung. Die Verwaltung und Zuordnung der Studien-IDs war nur ausgewählten an der Studie beteiligten Mitarbeitern möglich. Sowohl die Papier-Fragebögen als auch das elektronische Datenblatt werden getrennt vom Screening Enrolment-log für 10 Jahre in einem zugangsbeschränkten Schrank bzw. passwortgesicherten Laufwerk des arcT archiviert.

### 2.2.2 Studienfragebogen

Der Studienfragebogen wurde mit Hilfe der statistischen Beratungsstelle des Center for Pediatric Clinical Studies Tübingen (CPCS) entwickelt (siehe Anhang 7). Er war in drei Abschnitte untergliedert. Der erste Abschnitt beinhaltete 13 Fragen (Items) zu demografischen Merkmalen und der Ausgangslage der Kinder- und Hausärzte. Im zweiten Abschnitt wurden (i) basierend auf dem TAM, die Einflüsse von wahrgenommener Nützlichkeit (Perceived Usefulness [PU]), Benutzerfreundlichkeit (Perceived Ease of Use [PEOU]), Haltung (Attitude [ATT]) und Absicht zur Nutzung (Intention to Use [ITU]) ermittelt und (ii) die Haltung der Kinder- und Hausärzte bezüglich der Einführung der mHealth-Pilot-App *arcTmobile* evaluiert. Der dritte Abschnitt bestand aus drei offenen Fragen bezüglich Bedenken der Niedergelassenen zur Einführung der App bzw. telemedizinischen Sprechstunden. Außerdem bestand für die Befragten die Möglichkeit, Vorschläge und Ideen zur Weiterentwicklung der App zu äußern. Der Studienfragebogen wurde von einem unabhängigen, später nicht in die Befragung eingeschlossenen Hausarzt auf Verständlichkeit und Plausibilität hin geprüft. Der zeitliche Aufwand für das Ausfüllen des Studienfragebogens durch die Studienteilnehmer betrug 10 Minuten.

#### 2.2.2.1 Demographische Merkmale und Ausgangslage

Die Abfrage demografischer Merkmale der Studienteilnehmer umfasste Geschlecht, Alter, Facharztbezeichnung, Dauer der Tätigkeit als niedergelassener Facharzt und Einwohnerzahl des Praxisstandorts. Zusätzlich wurde die Anzahl der behandelten Patienten pro Quartal und die Anzahl der

betreuten Patienten mit AID erhoben. Darüber hinaus wurde die subjektive Einschätzung der Kompetenz und Vorerfahrung der Befragten in der Behandlung von AID erfasst und die weiterführende Frage, ob ein Wunsch nach mehr Unterstützung durch AID-Spezialisten bei der Behandlung der eigenen AID-Patienten besteht. Außerdem wurde erfragt, ob die Kinder- und Hausärzte für telemedizinische Sprechstunden technisch ausreichend ausgerüstet wären, ob sie durch die Corona-Pandemie telemedizinischen Technologien gegenüber aufgeschlossener seien und ob es in der Praxis bereits Berührungspunkte und Vorerfahrungen mit Gesundheits-Apps gab.

#### *2.2.2.2 Einflussfaktoren der Akzeptanz (Technology Acceptance Model)*

Basierend auf dem TAM wurden vier Einflussfaktoren für die Akzeptanz von telemedizinischen Sprechstunden mit AID-Spezialisten für Kinder- und Hausärzte und AID-Patienten formuliert und in 21 Items abgefragt. Die Items zu den Einflussfaktoren Wahrgenommene Nützlichkeit (PU), Benutzerfreundlichkeit (PEOU), Haltung (ATT) und Absicht zur Nutzung (ITU) wurden der Item-Batterie des TAM (91, 92) entnommen und nach Übersetzung ins Deutsche ohne inhaltliche Veränderungen übernommen. Eine endpunktbestimmte 7-Punkte Likert-Skala wurde zur Messung der subjektiven Einstellung der Befragten verwendet, wobei 1 = „stimme nicht zu“ und 7 = „stimme zu“ gilt.

Die wahrgenommene Nützlichkeit (PU) beschreibt laut Davis et al. (91) das Ausmaß, in dem eine Person glaubt, dass die Verwendung eines bestimmten Systems ihre Arbeitsleistung verbessern würde. In der vorliegenden Studie beschreibt dieses Konstrukt das Ausmaß, in dem die Kinder- und Hausärzte glauben, dass durch telemedizinische Sprechstunden mit AID-Spezialisten ihre AID-Patientenversorgung schneller, effizienter und besser werden kann.

Tabelle 2: Frage-Items der Kategorie Wahrgenommene Nützlichkeit (PU)

Kategorie	Frage-Item
PU1	Telemedizin* würde mir eine schnellere Versorgung von AID-Patienten ermöglichen.
PU2	Telemedizin kann meine Patientenversorgung von AID-Patienten nicht verbessern.
PU3	Telemedizin würde meine Effizienz in der Patientenversorgung von AID-Patienten verbessern.
PU4	Telemedizin kann meine Effizienz in der AID-Patientenversorgung nicht verbessern.
PU5	Telemedizin würde die Versorgung meiner AID-Patienten für mich vereinfachen.
PU6	Ich finde Telemedizin für meine AID-Patientenversorgung nicht nützlich.
*Telemedizin steht nachfolgend für Videosprechstunden mit AID-Experten (siehe Anschreiben an Studienteilnehmer Anhang 6)	

Abkürzungen: PU *Perceived Usefulness (Wahrgenommene Nützlichkeit)*, AID *Autoinflammatory Disease (Autoinflammatorische Erkrankung)*

Die Benutzerfreundlichkeit (PEOU) wird von Davis et al. (91) definiert als Ausmaß, in dem eine Person glaubt, dass die Verwendung eines bestimmten Systems ohne Aufwand wäre. Übertragen auf die Befragung der Niedergelassenen bildet das Konstrukt die Bedeutung der einfachen Erlernbarkeit und unkomplizierten Anwendung der telemedizinischen Technologie bei der Durchführung von telemedizinischen Sprechstunden im Praxis-Alltag ab.

Tabelle 3: Frage-Items der Kategorie Benutzerfreundlichkeit (PEOU)

Kategorie	Frage-Item
PEOU1	Es würde mir nicht leicht fallen den Umgang mit telemedizinischen Technologien zu erlernen.
PEOU2	Es würde mir leicht fallen die Telemedizin meinen Bedürfnissen entsprechend einzusetzen.
PEOU3	Die Benutzung von Telemedizin wäre für mich klar und verständlich.
PEOU4	Ich finde Telemedizin in der Benutzung inflexibel.
PEOU5	Es fällt mir nicht leicht mit telemedizinischen Technologien geschickt umzugehen.
PEOU6	Ich finde Telemedizin leicht anzuwenden.

Abkürzungen: PEOU *Perceived Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit)*

Das Konstrukt Haltung (ATT) beschreibt die allgemeine Einstellung zu einem bestimmten System. Im vorliegenden Fall soll es die prinzipielle Haltung der Kinder- und Hausärzte zu telemedizinischen Sprechstunden bei der AID-Versorgung widerspiegeln.

Tabelle 4: Frage-Items der Kategorie Haltung (ATT)

Kategorie	Frage-Item
ATT1	Die Anwendung von Telemedizin in der AID-Patientenversorgung ist eine gute Idee.
ATT2	Ich finde die Einführung von Telemedizin für die Versorgung meiner AID Patienten unerfreulich.
ATT3	Die Verwendung von Telemedizin würde für mich bei der AID-Patientenversorgung von Nutzen sein.

Abkürzungen: ATT *Attitude (Haltung)*, AID *Autoinflammatory Disease (Autoinflammatorische Erkrankung)*

Die Absicht zur Nutzung (ITU) beschreibt, ob eine Person ein System beabsichtigt zu nutzen. Mit diesen Items soll abgebildet werden, ob Kinder- und Hausärzte telemedizinische Sprechstunden in der AID-Versorgung, wenn verfügbar, in der Praxis nutzen würden.

Tabelle 5: Frage-Items der Kategorie Absicht zur Nutzung (ITU)

Kategorie	Frage-Item
ITU1	Ich würde telemedizinische Technologien in der Versorgung von Patienten mit AID nutzen, wenn sie verfügbar wären.
ITU2	Ich würde Telemedizin so oft wie nötig bei der AID-Patientenversorgung einsetzen.
ITU3	Ich möchte gar keine telemedizinischen Technologien in der AID-Patientenversorgung nutzen.
ITU4	Wenn möglich möchte ich keine telemedizinischen Technologien bei der Versorgung von AID-Patienten verwenden.
ITU5	Soweit möglich würde ich telemedizinische Technologien für verschiedene Zwecke benutzen.
ITU6	Soweit möglich würde ich Telemedizin in der AID-Patientenversorgung regelmäßig nutzen.

Abkürzungen: ITU *Intention to Use (Absicht zur Nutzung)*, AID *Autoinflammatory Disease (Autoinflammatorische Erkrankung)*

### 2.2.2.3 Haltung zur App *arcTmobile*

Im zweiten Abschnitt des Studien-Fragebogens wurde neben der Akzeptanz von telemedizinischen Sprechstunden auch die Haltung der Kinder- und Hausärzte bezüglich der geplanten Einführung der Pilot-App *arcTmobile* evaluiert. Dieser Abschnitt steht in Ergänzung zur *arcTmobile* Pilotstudie zur Prüfung der Machbarkeit des App-basierten Krankheitsaktivitätsmonitorings. Abgefragt wurde, ob die Niedergelassenen das App-basierte Krankheitsaktivitätsmonitoring für sinnvoll halten, ob sie ihren Patienten die Bedienung der App zutrauen und ob sie denken, dass die Einführung der App zur Verbesserung der Gesundheitskompetenz von Betroffenen und Familien beitragen kann.

Tabelle 6: Frage-Items der Kategorie App

Kategorie	Frage-Item
APP1	Ich halte die elektronische Dokumentation von Symptomen über die App <i>arcTmobile</i> bei AID-Patienten für sinnvoll.
APP2	Ich glaube, dass meine AID-Patienten das technische Know-How haben, um die App <i>arcTmobile</i> zu benutzen.

APP3	Ich glaube, dass es für meine AID-Patienten keine Hemmschwelle darstellt, eine App zum Symptom-Monitoring zu verwenden.
APP4	Ich denke, dass die Einführung der App <i>arcTmobile</i> zur Verbesserung der Gesundheitskompetenz von Betroffenen und ihren Familien beitragen kann.

Abkürzungen: APP Applikation (App)

#### 2.2.2.4 Offene Fragen

Der dritte Abschnitt enthielt drei offene Fragen. Erfragt wurden (i) Bedenken bezüglich der Einführung der App *arcTmobile*, (ii) Bedenken bezüglich der Videosprechstunden mit AID-Spezialisten und (iii) Vorschläge und Ideen für die Weiterentwicklung der App *arcTmobile*. Die Freitext-Antworten sollten der Feedback-basierten Konzeptionierung und Weiterentwicklung der telemedizinischen Formate App und Videosprechstunde dienen.

#### 2.2.3 Auswertung

Alle Fragebögen mit mindestens einer vollständig beantworteten Frage je Abschnitt wurden in der Analyse berücksichtigt. Die Anzahl fehlender Werte bei Items des TAM und die Haltung zur App *arcTmobile* wurden dokumentiert. In der Analyse des TAM mittels des Strukturgleichungsmodells wurden die fehlenden Angaben der einzelnen Items durch das Full-Information-Maximum-Likelihood-Verfahren (FIML) (93) geschätzt.

##### 2.2.3.1 Deskriptive Statistik

Die demografischen Merkmale und Ausgangslage der befragten Kinder- und Hausärzte, die allgemeine Haltung gegenüber Videosprechstunden, sowie die Fragen bezüglich der Haltung zur App *arcTmobile* wurden deskriptiv statistisch in IBM SPSS Statistics 26 ausgewertet und in Form von Tabellen und Diagrammen dargestellt. Bei den unter 2.2.2.1 aufgeführten Merkmalen der Stichprobe wurden absolute und relative Häufigkeiten berechnet. Bei den unter 2.2.2.3 aufgeführten Fragen erfolgte eine deskriptive Auswertung der mittels 7-Punkte-Likert-Skala ermittelten subjektiven Einstellung der Befragten. Auch die TAM-basierten Frage-Items (siehe 2.2.2.2) wurden vor Durchführung der

Strukturgleichungsanalyse (SEM) deskriptiv statistisch ausgewertet. Eine Bewertung von  $\geq 5/7$  Punkten wurde als positive Haltung definiert.

### 2.2.3.2 Strukturgleichungsmodell

Die korrelativen Zusammenhänge der Einflussfaktoren der Akzeptanz von Videosprechstunden mit AID-Spezialisten wurden mittels Strukturgleichungsmodell (SEM) geprüft. In der vorliegenden Studie stellen die Einflussfaktoren der Akzeptanz von Videosprechstunden Wahrgenommene Nützlichkeit (PU), Benutzerfreundlichkeit (PEOU), Haltung (ATT) und Absicht zur Nutzung (ITU) die geschätzten latenten Konstrukte dar. Latente Variablen sind nicht direkt messbare Konstrukte, die über geeignete Indikatorvariablen gemessen werden. Die Indikatorvariablen, alternativ manifeste Variablen, werden empirisch ermittelt. Die Frage-Items PU 1-6, PEOU 1-6, ATT 1-3 und ITU 1-6 wurden mittels einer 7-Punkte-Likert-Skala gemessen. Die negativ formulierten Items PU 2, 4, 6; PEOU 1, 4, 5; ATT 2; ITU 3, 4 wurden vor der Analyse entsprechend umcodiert, um eine Vergleichbarkeit der Items zu gewährleisten. Lineare SEM bestehen aus einem „Messmodell“ und dem „Strukturmodell“. Das Messmodell beschreibt den Zusammenhang zwischen den Indikatoren Items PU 1-6, PEOU 1-6, ATT 1-3 und ITU 1-6 mit den latenten Konstrukten PU, PEOU, ATT und ITU. Zur Formulierung des SEM muss festgelegt werden, welche gerichteten Zusammenhänge zwischen den latenten Variablen untersucht werden sollen (Strukturmodell, siehe [Abbildung 1](#)). Dabei wird zwischen exogenen und endogenen Variablen unterschieden. Exogene Variablen sind ausschließlich unabhängige, welche im Modell nicht durch andere Variablen erklärt werden. Die unabhängige Variable Benutzerfreundlichkeit (PEOU) wird nicht durch wahrgenommene Nützlichkeit (PU), Haltung (ATT) oder Absicht zur Nutzung (ITU) erklärt und fungiert im Modell als exogene Variable. Die verbleibenden drei Konstrukte PU, ATT und ITU sind endogene Variablen innerhalb des Modells. Im Strukturmodell wurde angenommen, dass die exogene Variable Benutzerfreundlichkeit (gemessen über die Items PEOU 1-6) die beiden endogenen Variablen Wahrgenommene Nützlichkeit (PU) und Haltung (ATT) beeinflusst. Weiter wurde angenommen,

dass die Wahrgenommene Nützlichkeit (gemessen über die Items PU 1-6), Einfluss auf Haltung (ATT) und Absicht zur Nutzung (ITU) und die Haltung (gemessen durch ATT 1-3) wiederum einen Effekt auf die Absicht zur Nutzung (ITU) hat.



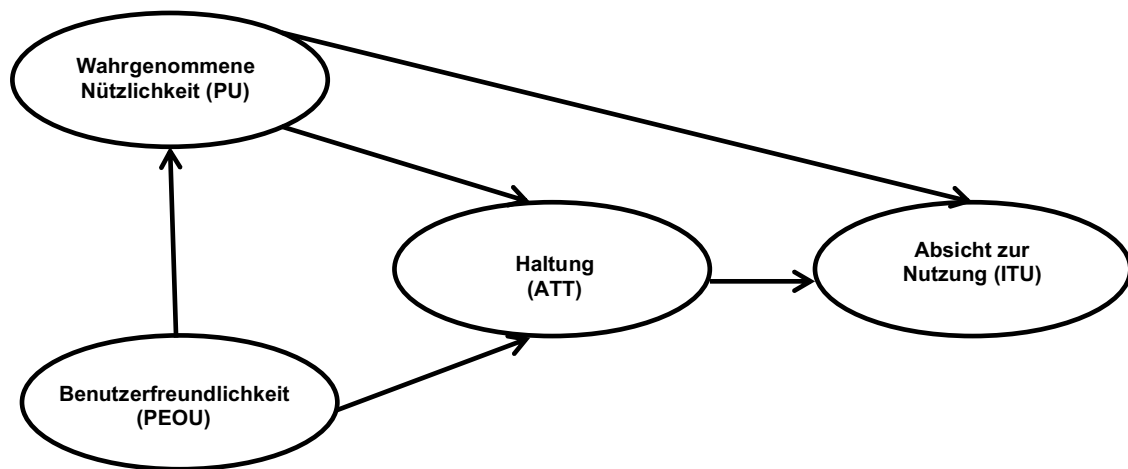


Abbildung 1: Strukturmodell des TAM mit Darstellung der gerichteten Zusammenhänge zwischen den latenten Variablen

Die Kombination aus Messmodell und Strukturmodell bildet das Gesamtmodell (siehe [Abbildung 2](#)), welches mittels der SEM-Analyse geprüft wurde. Jedes untersuchte Konstrukt wurde durch ein Messmodell mit einer latenten Variablen und mindestens drei maximal sechs Indikatoren spezifiziert. Anschließend wurden die latenten Faktoren über Regressionspfade miteinander verknüpft und das Strukturgleichungsmodell basierend auf den beschriebenen Annahmen mittels MPLUS Version 7 geprüft. Die Frage-Items (Indikatorvariablen) wurden bei der SEM-Analyse als kategoriale Variablen modelliert. Das Modell wurde mittels WLSMV-Schätzer (diagonally weighted least squares) (94) angepasst.

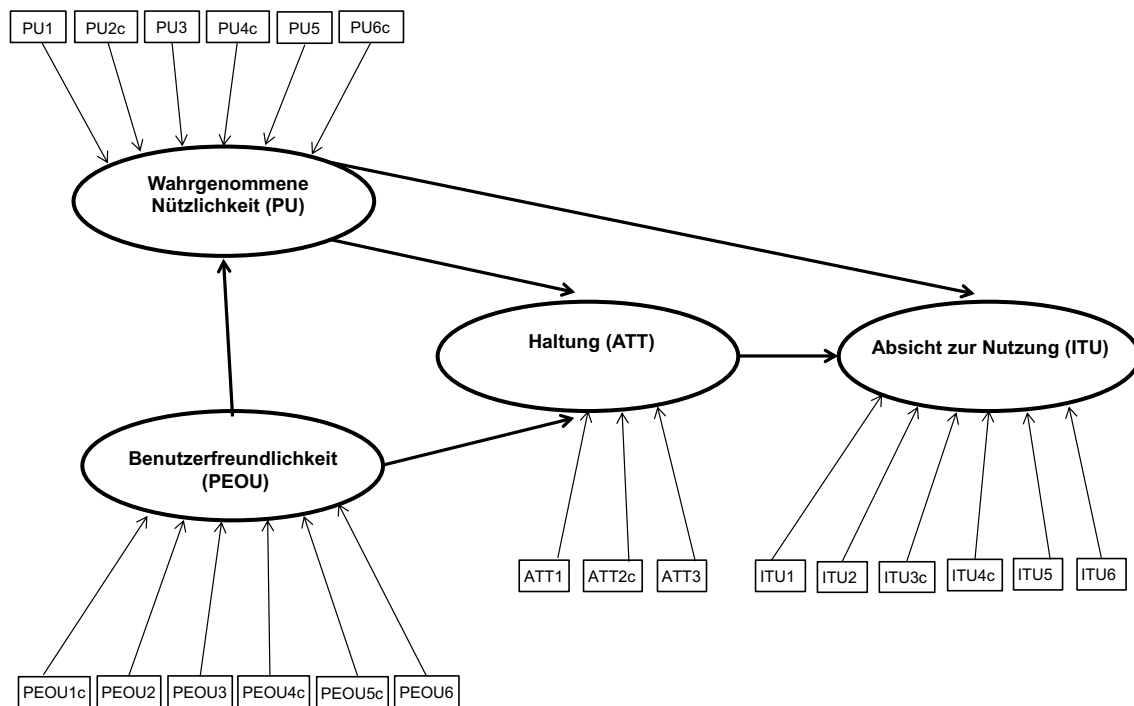


Abbildung 2: Gesamtmodell des TAM (Messmodell und Strukturmodell) mit Spezifizierung der latenten Variablen durch drei bzw. sechs Indikatorvariablen

Abkürzungen: PU Perceived Usefulness (Wahrgenommene Nützlichkeit), PEOU Perceived Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit), ATT Attitude (Haltung), ITU Intention to Use (Absicht zur Nutzung), P p-Wert/Signifikanzwert

### *Einfluss von Alter, Patientenaufkommen und Praxisstandort*

Zur erweiterten Analyse und Untersuchung zusätzlicher Einflussfaktoren wurde das Gesamtmodell um die manifesten Variablen Alter des befragten Arztes, Patientenaufkommen der Praxis und Einwohnerzahl des Praxisstandorts ergänzt. Die Variablen wurden aus der Erhebung der demografischen Merkmale (siehe 2.2.2.1) gebildet. Untersucht wurde der Einfluss von (i) Alter des Arztes > 60 Jahre, (ii) Patienten pro Quartal > 1500 und (iii) Einwohnerzahl des Praxisstandorts > 2000 auf das Konstrukt Haltung (ATT).

*Güteprüfung des Modells*

Die Modellgüte erlaubt eine Beurteilung darüber, inwieweit die erhobenen Daten im theoretischen Modell abgebildet werden können (95). Zur Einschätzung der Güte des Gesamtmodells wurden die globalen Gütekriterien Comparative Fit Index (CFI), Tucker-Lewis-Index (TLI) und Weighted-Root-Mean-Square-Residual (WRMR) berechnet. CFI und TLI sind inkrementelle Indizes, die durch den Vergleich des Modells mit einem Null-Modell Aussagen über den Modell-Fit treffen können. In einem Null-Modell werden keine inhaltlichen Zusammenhänge abgebildet. CFI und TLI zeigen auf, um wie viel die empirisch erhobenen Daten besser in das postulierte Modell als in das Null-Modell passen. Werte  $> 0,9$  gelten als gute Modellanpassung (96).

Der WRMR bewertet, inwieweit sich die beobachteten Varianzen im Durchschnitt mit Hilfe des Modells reproduzieren lassen. Dabei wird kein Bezug zu einem Null-Modell genommen (Stand-Alone-Kriterium). Werte  $\leq 0,9$  gelten als sehr gut, Werte  $\leq 1,0$  als akzeptabel (97).

## 3 Ergebnisse

### 3.1 Pilotstudie *arcTmobile*

#### 3.1.1 Beschreibung der Studienpopulation

Es wurden 16 Patienten mit AID in die Pilotstudie eingeschlossen. Davon waren acht (50,0%) weiblich. Das Durchschnittsalter lag zum Zeitpunkt des Studieneinschlusses bei 17,6 Jahren (range 4,2-53,1 Jahre). Fünf (31,2%) Patienten waren älter, elf (68,8%) Patienten jünger als 18 Jahre. Von den eingeschlossenen Patienten hatten zwei (12,5%) die Diagnose FMF, einer (6,3%) ein TRAPS, zwölf (75,0%) hatten ein CAPS und einer (6,3%) hatte eine unklassifizierte AID (siehe [Abbildung 3](#)). Zum Zeitpunkt des Studieneinschlusses (t0) gaben die Teilnehmenden zur Beurteilung ihrer aktuellen Krankheitsaktivität einen mittleren PPGA von 3,7 an (range: 0-8). Der PGA-Wert lag im Mittel bei 2,5 (range 1-6). Drei Teilnehmende gaben an, an einer hochtonalen Schwerhörigkeit zu leiden. Nur ein Teilnehmender gab Komorbiditäten an. 14 Patienten (87,5%) wurden mit dem IL-1-Inhibitor Canakinumab und zwei (12,5%) mit dem IL-6-Inhibitor Tocilizumab therapiert (siehe [Tabelle 7](#)). Bei keinem der eingeschlossenen Patienten lag zum Studieneinschluss ein Infekt vor. Elf Studienteilnehmende gaben an, dass das tägliche Krankheitsaktivitätsmonitoring im Papier-Beschwerdetagebuch *myAIDAI* durch die Eltern erfolge. Bei diesen Patienten wurde auch die Dokumentation in der App *arcTmobile* von den Eltern durchgeführt.

Tabelle 7: Demografie und Krankheitscharakteristika

Demografie und Krankheitscharakteristika	
Weibliches Geschlecht (%)	8 (50%)
Medianes Alter in Jahren (Range)	17,6 (4,2-53,1)
Mediane Krankheitsaktivität (Range)	
- Patients/Parents Global Assessment (Range)	3,7 (0-8)
- Physician Global Assessment (Range)	2,5 (1-6)
Therapie (%)	
- Canakinumab (IL-1 Inhibitor)	14 (87,5%)
- Tocilizumab (IL-6-Inhibitor)	2 (12,5%)

Abkürzungen: AID *Autoinflammatory Disease (Autoinflammatorische Erkrankung)*, IL-1 *Interleukin 1*, IL-2 *Interleukin 2*

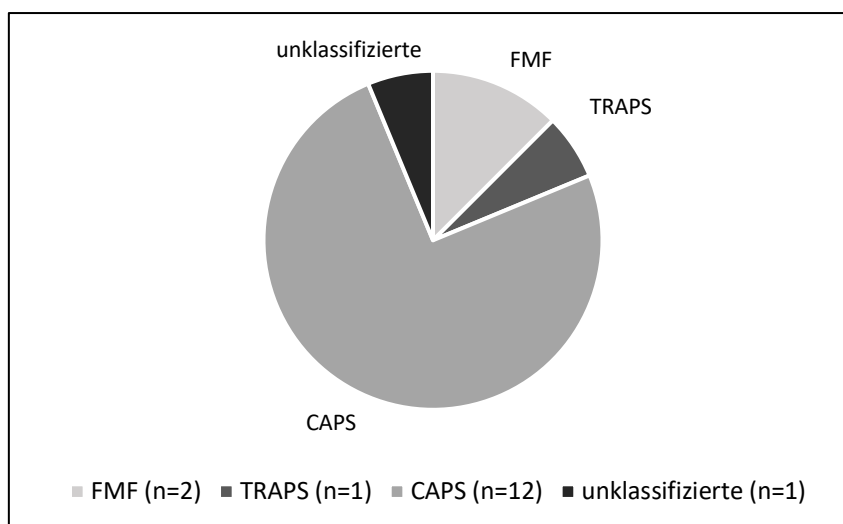


Abbildung 3: Verteilung der Diagnosen innerhalb der Studienpopulation

Abkürzungen: n *Anzahl*, FMF *Familiäres Mittelmeerfieber*, TRAPS *Tumornekrosefaktor-Rezeptor assoziiertes periodisches Syndrom*, CAPS *Cryopyrin-assoziierte periodische Syndrome*

### 3.1.2 Ergebnisse System Usability Scale (SUS)-Fragebogen

Der Fragebogen-Rücklauf für den SUS zum Zeitpunkt t1 betrug 100% (16/16). Davon waren alle vollständig ausgefüllt und konnten in die Analyse einbezogen werden. Der mittlere SUS-Score für die Pilot-App *arcTmobile* betrug 81,6 (Standardabweichung SD 10,4). Basierend auf der curved grading scale von

Sauro und Lewis (88) (siehe [Tabelle 1](#)) entspricht dies einem Prozentrang von 90-95 und einer amerikanischen Schulnote A. Das 95% Konfidenzintervall lag bei 5,078. Der niedrigste erreichte Score lag bei 62,5, was einem Prozentrang von 15-34 und der Schulnote D entspricht. Der höchste erreichte Score lag bei 92,5, entsprechend einem Prozentrang von 96-100 und der Schulnote A+.

*Tabelle 8: Ergebnisse der System Usability Scale (SUS)*

System Usability Scale												
ID	F1	F2	F3	F4	F5	F6	F7	F8	F9	F10	SUS Score	
1	2	1	2	1	2	4	3	1	5	1	65,0	
2	2	3	4	2	3	3	3	2	4	1	62,5	
3	2	3	4	2	3	3	3	2	4	1	62,5	
4	5	1	5	1	2	2	5	1	5	1	90,0	
5	5	1	5	2	4	2	5	2	3	2	82,5	
6	4	1	5	1	2	2	4	1	4	1	82,5	
7	4	1	5	1	4	3	4	1	4	1	85,0	
8	5	1	5	1	4	2	5	1	4	1	92,5	
9	2	2	5	1	4	2	5	1	4	1	82,5	
10	5	1	5	1	3	3	5	1	5	1	90,0	
11	5	2	4	1	3	2	5	3	4	1	80,0	
12	5	3	3	1	2	3	5	2	4	1	72,5	
13	4	1	5	1	3	2	5	1	5	1	90,0	
14	4	1	5	1	3	2	5	1	5	1	90,0	
15	4	1	5	1	5	3	4	1	5	1	90,0	
16	5	2	5	1	4	2	5	2	4	1	87,5	
											Gesamt SUS Score	81,6
											Standardabweichung	10,4
											95% Konfidenzintervall	5,1

Abkürzungen: ID Patienten-Identifikationsnummer, F1-10 Frage 1-10, SUS System Usability Scale

### 3.1.3 Ergebnisse Usability Satisfaction and Ease of Use (USE)-Fragebogen

Die Rücklaufquote für den USE-Fragebogen zum Zeitpunkt t0 und t1 betrug jeweils 100% (16/16). Für die Auswertung zum Zeitpunkt t0 (Studieneinschluss, Evaluation des *myAIDAI*) konnten alle 16 USE-Fragebögen für die Analyse berücksichtigt werden; zum Zeitpunkt t1 konnten 15 der 16 retournierten Fragebögen berücksichtigt werden, ein Fragebogen wurde unvollständig ausgefüllt zurückgesendet.

Die Auswertung der Version 1 des USE-Fragebogens zur Evaluation des Papier-Beschwerdetagebuchs *myAIDAI* (USE\_P) ergab Mittelwerte von 5,14 für die Kategorie Nützlichkeit (UU), 4,73 für die Kategorie Benutzerfreundlichkeit (UE), für die Kategorie Erlernfreundlichkeit 6,02 (UL) und 3,83 für die Kategorie Zufriedenheit (US) (siehe [Tabelle 9](#)). Version 2 des USE-Fragebogens zur Beurteilung der App *arcTmobile* (USE\_A) erzielte für die Kategorie Nützlichkeit den Mittelwert 4,30 (UU), für die Kategorie Benutzerfreundlichkeit 5,03 (UE), für die Kategorie Erlernfreundlichkeit 6,08 (UL) und für die Kategorie Zufriedenheit 4,46 (US) (siehe [Tabelle 10](#)). In den Kategorien Benutzerfreundlichkeit (UE), Erlernfreundlichkeit (UL) und Zufriedenheit (US) erzielte die App *arcTmobile* höhere Werte im Vergleich zum *myAIDAI* Papiertagebuch (siehe [Abbildung 4](#)). Nur in der Kategorie Nützlichkeit (UU) zeigte der Papier *myAIDAI* höhere Mittelwerte im Vergleich.

Tabelle 9: Auswertung des USE\_P Fragebogens

Usability Satisfaction and Ease of Use (USE_P) <i>Papierstagebuch</i>				
Kategorie	Mittelwert	SD	Min	Max
UU_P	5,14	1,63	1	7
UE_P	4,73	1,88	1	7
UL_P	6,02	1,28	2	7
US_P	3,83	2,02	1	7

Abkürzungen: \_P *Papierstagebuch*, UU\_P *Usefulness (Nützlichkeit)*, UE\_P *Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit)*, UL\_P *Ease of Learning (Erlernfreundlichkeit)*, US\_P *Satisfaction (Zufriedenheit)*, SD *Standardabweichung*, Min *Minimum*, Max *Maximum*

Tabelle 10: Auswertung des USE\_A Fragebogens

Usability Satisfaction and Ease of Use (USE_A) <i>App arcTmobile</i>				
Kategorie	Mittelwert	SD	Min	Max
UU_A	4,31	1,58	1	7
UE_A	5,02	1,74	1	7
UL_A	6,08	1,19	3	7
US_A	4,47	1,53	1	7

Abkürzungen: \_A *App arcTmobile*, UU\_A *Usefulness (Nützlichkeit)*, UE\_A *Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit)*, UL\_A *Ease of Learning (Erlernfreundlichkeit)*, US\_A *Satisfaction (Zufriedenheit)*, SD *Standardabweichung*, Min *Minimum*, Max *Maximum*



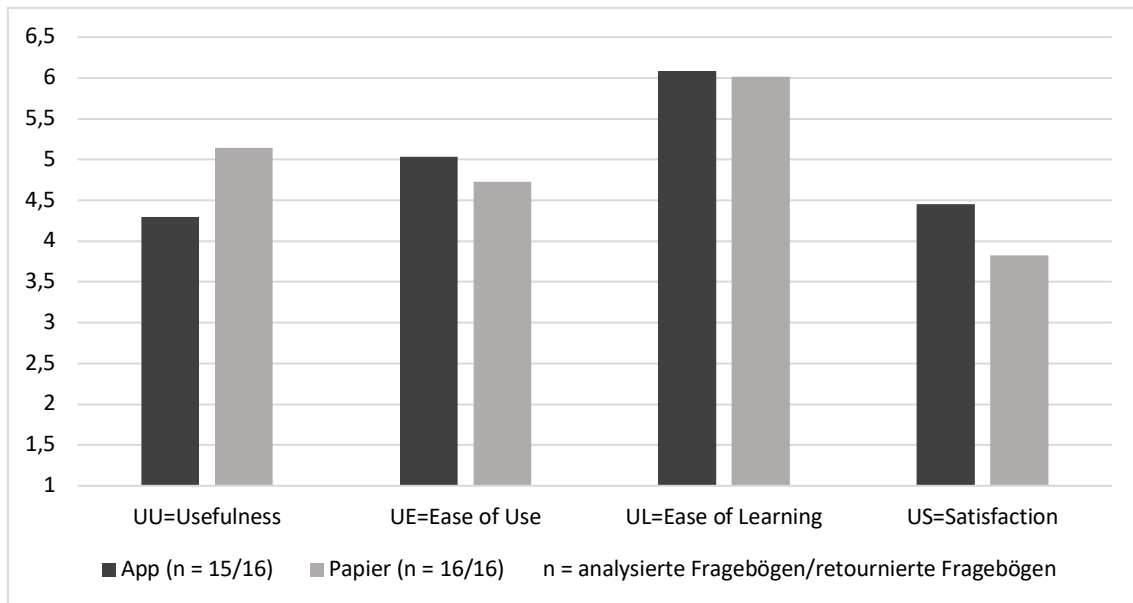


Abbildung 4: Vergleich der Mittelwerte *USE\_App* vs. *USE\_Papier*

Abkürzungen: *\_A* App arcTmobile, *\_P* Papiertagebuch, *UU\_A* Usefulness (Nützlichkeit), *UE\_A* Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit), *UL\_A* Ease of Learning (Erlernfreundlichkeit), *US\_A* Satisfaction (Zufriedenheit), *SD* Standardabweichung, *Min* Minimum, *Max* Maximum

Die Wilcoxon-Tests ergaben keine signifikanten Unterschiede in den zentralen Tendenzen der Mittelwerte von *USE\_P* und *USE\_A*. Der größte Unterschied konnte trotz nicht signifikanter Ergebnisse in der Kategorie Zufriedenheit (*US*) ausgemacht werden (Wilcoxon-Test:  $z = -1.364$ ,  $p = 0.172$ ). Die Effektstärke liegt bei  $r = .34$  und entspricht nach Cohen (1992) einem mittleren Effekt.

Tabelle 11: Ergebnisse Wilcoxon-Test zum Vergleich USE\_A und USE\_P

Wilcoxon-Test				
		N	Mittlerer Rang	Rangsumme
USE_P - USE_A	Negative Ränge	3 <sup>a</sup>	2,00	6,00
	Positive Ränge	1 <sup>b</sup>	4,00	4,00
	Bindungen	0 <sup>c</sup>		
	Gesamt	4		
a. USE_P < USE_A				
b. USE_P > USE_A				
c. USE_P = USE_A				

Abkürzungen: USE\_P Usefulness Satisfaction and Ease of Use Fragebogen bezogen auf Papiertagebuch, USE\_A Usefulness Satisfaction and Ease of Use Fragebogen bezogen auf App arcTmobile

Tabelle 12: Statistik Wilcoxon-Test

Statistik Wilcoxon-Test	
USE_P - USE_A	
Z	-,365 <sup>b</sup>
Asymptotische Signifikanz (2-seitig)	,715
a. Wilcoxon-Test	
b. Basiert auf positiven Rängen.	

Abkürzungen: USE\_P Usefulness Satisfaction and Ease of Use Fragebogen bezogen auf Papiertagebuch, USE\_A Usefulness Satisfaction and Ease of Use Fragebogen bezogen auf App arcTmobile

### 3.2 Niedergelassenen-Studie

Insgesamt wurde an 115 Kinder- und Hausärzte ein Fragebogen versendet. Der Gesamtrücklauf der Fragebögen betrug 54% (62/115). 30% (34/115) wurden bis zum Zeitpunkt t1 zurückgesendet, 19% (22/115) nach der ersten telefonisch erfolgten Erinnerung bis Zeitpunkt t2 und 5% (6/115) nach der zweiten Erinnerung. In 8% (9/115) der Fragebögen wurden mehr als ein Item nicht beantwortet. Kein Fragebogen enthielt mehr als elf unbeantwortete Frage-Items. Alle 62 zurückgesendeten Fragebögen wurden in die Auswertung eingeschlossen.

#### 3.2.1 Demografie und Charakteristika der befragten niedergelassenen Ärzte

Weiblich waren 40% (25/62) der Befragten. Die Mehrheit der Befragten war zwischen 45 und 60 Jahren alt. Eine genaue Altersverteilung zeigt [Tabelle 13](#). Der Großteil aller Befragten war als niedergelassener Pädiater (87% (54/62)) tätig. Darüber hinaus nahmen 10% (6/62) Allgemeinmediziner und 3% (2/62) niedergelassene Internisten an der Befragung teil. Nur 3,2% (2/62) der Befragten waren zum Zeitpunkt der Befragung seit weniger als 5 Jahren in ihrer Praxis tätig, 35,5% (22/62) zwischen fünf und zehn Jahren, 32,3% (20/62) zwischen elf und 20 Jahren und 29,0% (18/62) seit über 20 Jahren. Die Minderheit der befragten Praxen lag in Orten mit Einwohnerzahlen < 5.000 (3,2% (2/62)) oder > 100.000 (14,5% (9/62)), eine genaue Verteilung ist in [Abbildung 5](#) zu sehen. Zur behandelten Patientenzahl machten 61/62 Befragten Angaben, diese variierte pro Quartal zwischen 500 und 1000 Patienten und 1500 bzw. über 1500 Patienten pro Quartal (siehe [Tabelle 13](#)). Auch die Anzahl der betreuten AID-Patienten variierte stark unter den Befragten. Dabei gaben 8,1% (5/62) an, einen AID-Patienten zu betreuen, 45,2% (28/62) zwei bis vier Patienten, 25,8% (16/62) fünf bis neun Patienten und 17,7% (11/62) betreuten mehr als zehn AID-Patienten ([Tabelle 13](#)). In der Behandlung von AID-Patienten fühlten sich 27,4% (17/62) sehr unsicher oder unsicher, 27,4% fühlten sich sehr sicher bzw. sicher und 45,2% (28/62) neutral. Insgesamt bestand bei 71% (44/62) der Wunsch nach Unterstützung bei der Behandlung von AID-Patienten.

Über die technische Ausrüstung für telemedizinische Sprechstunden verfügten nach eigenen Angaben 56,5% (35/62). 24,2% (15/62) der Befragten gaben an, Patienten zu betreuen, welche bereits Gesundheits-Apps nutzen. Bezüglich Gesundheits-Apps wurden 18% (11/62) der niedergelassenen Ärzte bereits von Patienten angesprochen. Nach Eigenaussage sind 60% (37/62) der Teilnehmenden durch die Covid-19-Pandemie telemedizinischen Technologien gegenüber aufgeschlossener geworden.

*Tabelle 13: Demografie und Charakteristika der niedergelassenen Ärzte*

Demografie und Charakteristika der befragten niedergelassenen Ärzte (n=62)	
Weibliches Geschlecht (%)	25 (40%)
Alter (%) (n=60)	
31-45 Jahre	6 (10%)
46-60 Jahre	45 (75%)
>60 Jahre	9 (15%)
Facharztausbildung	
Pädiatrie	54 (87%)
Allgemeinmedizin	6 (10%)
Innere Medizin	2 (3%)
Zeit in Praxis	
< 5 Jahre	2 (3,2%)
5-10 Jahre	22 (35,5%)
11-20 Jahre	20 (32,3%)
> 20 Jahre	18 (29%)
Anzahl Patienten/Quartal (n=61)	
< 500	0 (0%)
501-1.000	9 (14,8%)
1.001-1.500	26 (42,6%)
>1.500	26 (42,6%)
Anzahl AID-Patienten/Quartal	
1	5 (8,3%)
2-4	28 (46,7%)
5-9	16 (26,7%)
>10	11 (18,3%)

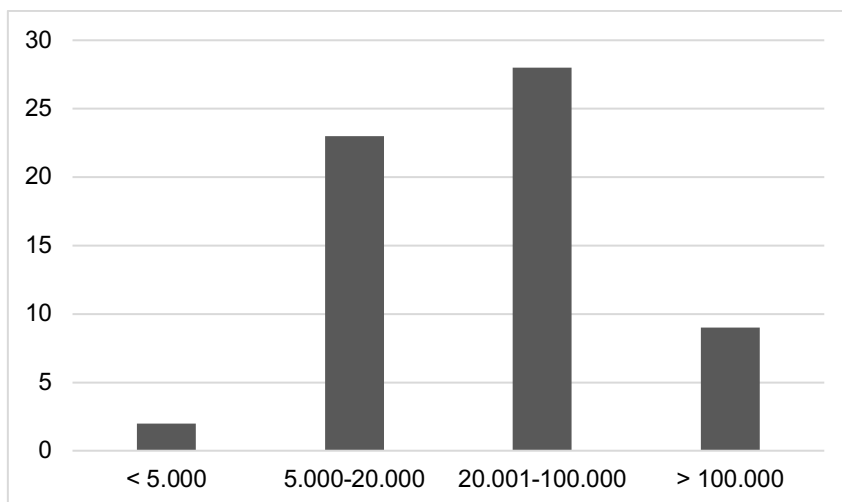


Abbildung 5: Einwohnerzahl des Praxisstandorts der Befragten, n=62 (100%)

### 3.2.2 Einflussfaktoren der Haltung (Technology Acceptance Model)

#### 3.2.2.1 Auswertung der Einflussfaktoren

Die Nützlichkeit (PU) von telemedizinischen Sprechstunden mit AID-Experten bewerteten 55% (34/62) der Teilnehmenden als positiv ( $\geq 5/7$  Punkten). Die Anwendung der telemedizinischen Technologie bei der Durchführung von telemedizinischen Sprechstunden im Praxis-Alltag wurde von 56% (35/62) als gut durchführbar und leicht erlernbar (PEOU) gewertet. Eine positive Haltung zu Videosprechstunden bei der AID-Versorgung hatten 65% (40/62) der Befragten. Videosprechstunden würden 60% (37/62) mit AID-Experten in der AID-Versorgung, wenn sie verfügbar wären, sofort nutzen.

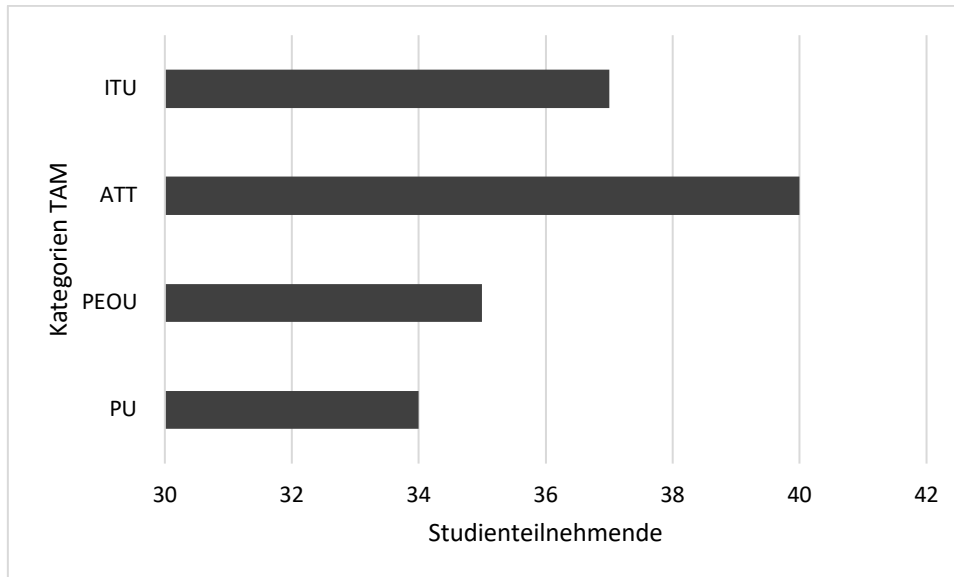


Abbildung 6: Auswertung der Kategorien des TAM

Abkürzungen: ITU *Intention to Use (Absicht zur Nutzung)*, ATT *Attitude (Haltung)*, PEOU *Perceived Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit)*, PU *Perceived Usefulness (Wahrgenommene Nützlichkeit)*

### 3.2.2.2 Einflussfaktoren wahrgenommene Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit, Haltung und Absicht zur Verwendung im Strukturgleichungsmodell

Im Messmodell wurde der Zusammenhang zwischen den latenten Variablen (PU, PEOU, ATT und ITU) und den Indikatorvariablen (Frage-Items PU 1-6, PEOU 1-6, ATT 1-3 und ITU 1-6) mittels Faktorenanalyse bestimmt. Die Faktorladungen betragen bei der wahrgenommenen Nützlichkeit (PU) zwischen 0,88-0,96, bei der Benutzerfreundlichkeit (PEOU) zwischen 0,62-0,89, bei der Haltung (ATT) zwischen 0,88-0,98 und bei der Absicht zur Nutzung (ITU) zwischen 0,79-0,97. Die hohe Korrelation zeigt, dass die nicht direkt messbaren latenten Variablen durch die in Form von Frage-Items (7er-Likert-Skala) empirisch erhobenen Indikatorvariablen erfolgreich spezifiziert werden konnten. Im Strukturmodell konnten die gerichteten Zusammenhänge zwischen den latenten Variablen entsprechend, der in 2.2.3.2 postulierten Annahmen, dargestellt werden. Die Benutzerfreundlichkeit zeigte eine signifikante Assoziation mit der wahrgenommenen Nützlichkeit ( $\beta=0.66$ ,  $p<0.001$ ). Die wahrgenommene Nützlichkeit war positiv mit der Haltung zur Videosprechstunde bei der AID-Versorgung assoziiert ( $\beta=0.98$ ,  $p<0.001$ ). Benutzerfreundlichkeit und Nützlichkeit erklärten 94% der Varianz der Haltung

zur Videosprechstunde ( $R^2=0.94$ ). Die wahrgenommene Nützlichkeit kombiniert mit der Haltung erklärten 93% der Varianz bei der Intention Videosprechstunden in der AID-Versorgung zu nutzen ( $R^2=0.93$ ) (siehe [Abbildung 7](#)).

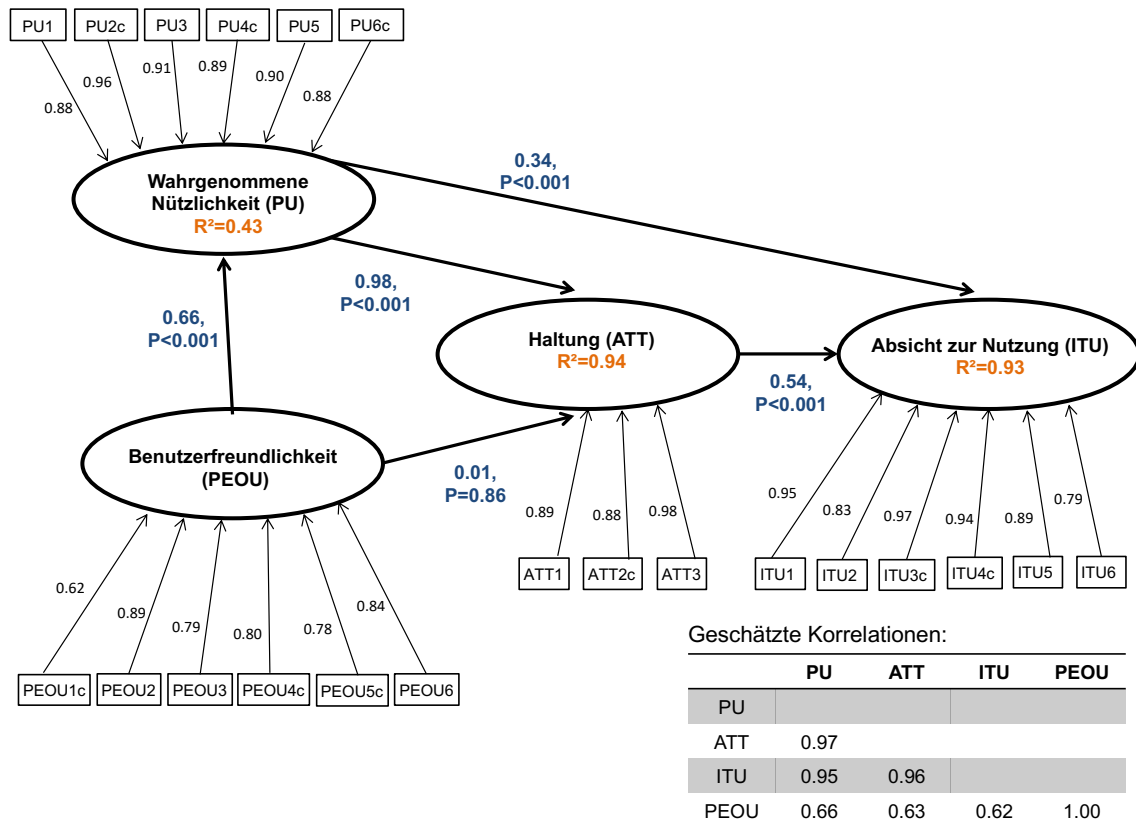


Abbildung 7: Ergebnisse des Mess- und Strukturmodells des TAM mit Darstellung der Indikatorvariablen (PU1-6, PEOU1-6, ATT1-3, ITU1-6) und des gerichteten Zusammenhangs zwischen den latenten Variablen (Wahrgenommene Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit, Haltung und Absicht zur Nutzung)

**Abkürzungen:** PU Perceived Usefulness (Wahrgenommene Nützlichkeit), PEOU Perceived Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit), ATT Attitude (Haltung), ITU Intention to Use (Absicht zur Nutzung), P p-Wert/Signifikanzwert

### 3.2.2.3 Einflussfaktoren Alter, Patientenaufkommen und Praxisstandort

Die zusätzlich untersuchten Einflüsse von Alter der Befragten, Patientenaufkommen und Einwohnerzahl des Praxisstandorts auf das Konstrukt Haltung (ATT) waren nicht signifikant. Allerdings zeigten sich ältere Ärzte (>60 Jahre) tendenziell ablehnender gegenüber Videosprechstunden ( $\beta=-0,1$ ,

p=0.948). Befragte aus Praxen mit einem höheren Patientenaufkommen (>1500 Patienten/Quartal) zeigten sich geringfügig aufgeschlossener gegenüber Videosprechstunden in der AID-Versorgung ( $\beta=0,24$ ,  $p=0,170$ ) im Vergleich zu Praxen mit  $\leq 1500$  Patienten/Quartal. Auch teilnehmende Ärzte aus größeren Städten (>20.000 Einwohner) zeigten sich tendenziell aufgeschlossener gegenüber Videosprechstunden in der AID-Versorgung. Die drei Faktoren wurden gemeinsam in das Strukturmodell aufgenommen (siehe [Abbildung 8](#)). Bei Prüfung der Zusammenhänge der einzelnen Variablen in drei separaten Modellen ergaben sich vergleichbare Ergebnisse.

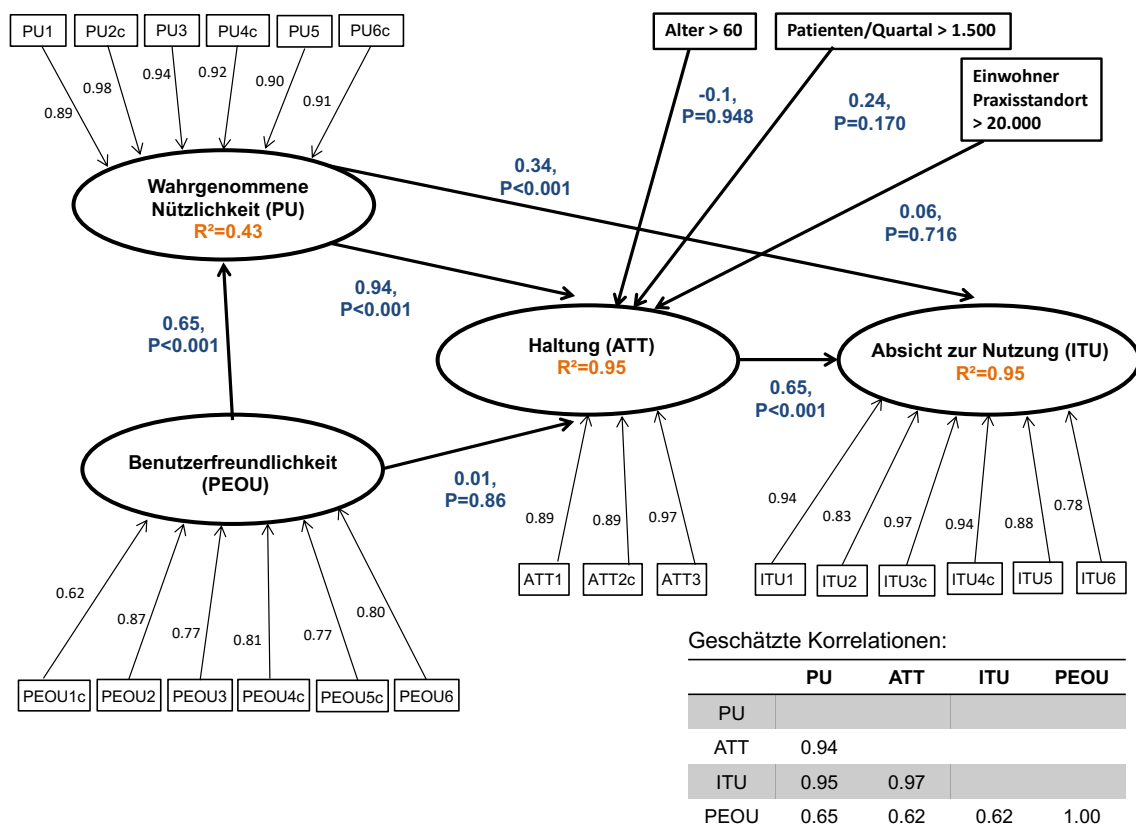


Abbildung 8: Mess- und Strukturmodell mit den Ergänzungen zum Einfluss des Alters des Befragten, der Anzahl der behandelten Patienten pro Quartal und der Einwohnerzahl des Praxisstandorts

Abkürzungen: PU Perceived Usefulness (Wahrgenommene Nützlichkeit), PEOU Perceived Ease of Use (Benutzerfreundlichkeit), ATT Attitude (Haltung), ITU Intention to Use (Absicht zur Nutzung), P p-Wert/Signifikanzwert



#### 3.2.2.4 Güteprüfung des Strukturmodells

Das Strukturgleichungsmodell führte zu einer akzeptablen Modellgüte. Die globalen Gütekriterien Comparative Fit Index (CFI) und Tucker-Lewis-Index (TLI) erreichten Werte von jeweils 0.98. Diese Werte gelten als gute Modellanpassung ( $>0.9$ ) und zeigen auf, dass die erhobenen Daten besser in das postulierte Modell als in das Null-Modell (keine inhaltlichen Zusammenhänge) passen. Der Weighted-Root-Mean-Square-Residual (WRMR) ergab einen Wert von 0.81. Auch hier kann von einer sehr guten Modellanpassung gesprochen werden (Wert  $\leq 0,9$ ), die beobachteten Varianzen lassen sich mit Hilfe des Modells im Durchschnitt gut reproduzieren.

#### 3.2.3 Haltung der Niedergelassenen zur App *arcTmobile*

Neben der Akzeptanz von Videosprechstunden wurde von den befragten Kinder- und Hausärzten auch die geplante Einführung der App *arcTmobile* im Durchschnitt positiv bewertet ( $\geq 5/7$  Punkten). 71% (44/62) der Befragten hielten die elektronische Dokumentation von Symptomen über die App *arcTmobile* bei AID-Patienten für sinnvoll. 53% (33/62) glaubten, dass ihre AID-Patienten das technische Vorwissen haben, um die App *arcTmobile* zu benutzen und 56% (35/62), dass es für ihre AID-Patienten keine Hemmschwelle darstellt, eine App zum Krankheitsaktivitätsmonitoring zu verwenden. Dass die Einführung der App *arcTmobile* zur Verbesserung der Gesundheitskompetenz von Betroffenen und ihren Familien beitragen kann, denken 71% (44/62) der Teilnehmenden.

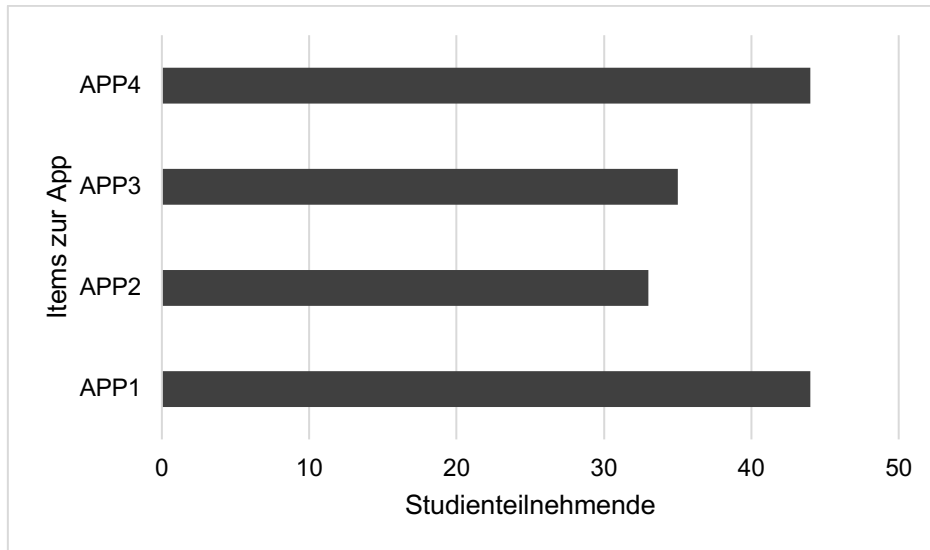


Abbildung 9: Haltung der Niedergelassenen zur App arcTmobile

Abkürzungen: APP1-4 Frage-Items zur Evaluation der Haltung der Kinder- und Hausärzte bezüglich der geplanten Einführung der App arcT-mobile

## 4 Diskussion

Die vorliegende Dissertation untersucht die Machbarkeit und Akzeptanz von telemedizinischen Versorgungsmodellen für Patienten mit AID. Bisher gibt es keine Evidenz zu Nützlichkeit und Akzeptanz von App-basierter Symptombdokumentation und telemedizinischen Expertenkonsilen für AID-Patienten. In dieser Arbeit konnte gezeigt werden, dass sowohl die App *arcTmobile*, als auch der Entwurf eines Versorgungsmodells mit Videosprechstunden zwischen AID-Experten und niedergelassenen Pädiatern/Hausärzten mit ihren AID-Patienten positiv angenommen werden würde. Der Wunsch nach Unterstützung bei der heimatnahen AID-Versorgung ist groß und die in dieser Arbeit untersuchten telemedizinische Modelle wie App-basiertes Krankheitsaktivitätsmonitoring und telemedizinische Sprechstunden in Form von Expertenkonsilen, stoßen auf breite Akzeptanz. Die Realisierung beider Konzepte könnte die AID-Versorgung nachhaltig optimieren und personalisieren, und damit das AID-Management verbessern. Darüber hinaus konnte herausgearbeitet werden, dass durch die Covid-19-Pandemie die Haltung gegenüber telemedizinischen Versorgungsmodellen im medizinisch ambulanten Sektor, hier untersucht an niedergelassenen Kinder-/Hausärzten, positiv beeinflusst wurde.

### 4.1 Akzeptanz, Machbarkeit und Nutzen von App-basiertem Krankheitsaktivitätsmonitoring

Die Evaluation von Nützlichkeit und Benutzerfreundlichkeit der App *arcTmobile* im Vergleich zum Papier-Beschwerdetagebuch *myAIDAI* haben gezeigt, dass ein App-basiertes Krankheitsaktivitätsmonitoring für Patienten mit AID machbar und nützlich sein kann. Bisher gibt es keine Daten zum App-basierten Krankheitsaktivitätsmonitoring bei AID. In der Pilotstudie konnte gezeigt werden, dass AID-Patienten einem solchen aufgeschlossen gegenüberstehen und die Pilot-App *arcTmobile* positiv wahrgenommen wurde (amerikanische Schulnote A). Im Vergleich zum Papier-Beschwerdetagebuch zeigte sich für die Pilot-App eine hohe Zufriedenheit. Die Benutzerfreundlichkeit (UE),

Erlernfreundlichkeit (UL) und Zufriedenheit (US) wurden bei der App *arcTmobile* besser bewertet als beim *myAIDA* Papier-Beschwerdetagebuch.

In den letzten Jahren hat der mHealth Sektor und das digitale Krankheitsaktivitätsmonitoring über Smartphones in der Patientenbetreuung zunehmend Berücksichtigung gefunden (98). Im Jahr 2021 besaßen 88,8% der deutschen Bevölkerung ein Smartphone (99). Unter den 20- bis 29-Jährigen waren es 95,5% und auch im Kindes- und Jugendalter stieg der Anteil an Smartphone-Nutzern kontinuierlich an. 86% der 10- bis 12-jährigen und 95% der 13- bis 15-jährigen Deutschen hatten 2021 ein eigenes Smartphone (100). Gleichzeitig steigt die Anzahl an m-health App-Angeboten und App-Downloads (101). Allerdings weisen Apps im Gesundheitsbereich noch qualitative Defizite auf (102). Bis dato weiß man, dass Gesundheits-Apps vom Patienten als nützlich und benutzerfreundlich wahrgenommen werden sollten, um eine regelmäßige und sinnvolle Nutzung zu gewährleisten. Austin et al. testeten ihre Krankheitsaktivitätsmonitoring-App mit integriertem Datentransfer in die elektronische Patientenakte für Patienten mit Rheumatoider Arthritis in einer 3-monatigen Studie und konnten eine gute Akzeptanz der App zeigen (103). Colls et al. (104) untersuchte die Akzeptanz ihrer entwickelten App zur Erfassung der Krankheitsaktivität bei Patienten mit Rheumatoider Arthritis und konnten über eine 6-monatige Testphase eine gute Akzeptanz zeigen. Die täglichen Fragen zur Erfassung der Krankheits-Aktivität wurden von 79% der Teilnehmenden bearbeitet, wobei ein höheres Alter (>65 Jahre) und eine geringere Krankheitsaktivität positiven Einfluss auf die Akzeptanz der App-Nutzung hatten (104). Darüber hinaus konnte Rudin et al. zeigen, dass vier Kernkomponenten für die Akzeptanz und spätere Nutzung von App-basiertem Krankheitsaktivitätsmonitoring relevant scheinen: (i) Einladung und Empfehlung zur App-Nutzung durch den behandelnden Arzt, (ii) Erinnerungs-Funktion zum Ausfüllen des Symptom-orientierten Kurzfragebogens, (iii) Darstellung einer Übersicht über die Eintragungen der letzten ein bis sechs Monate, sowie (iv) die Übertragung in die elektronische Patientenakte des Patienten und die einfache Einsehbarkeit der eingetragenen Daten für den behandelnden Arzt in der Klinik

(105). Die ersten drei Aspekte decken sich mit den Erkenntnissen der Pilotstudie *arcTmobile*. Mayoral et al. zeigte, dass ein interaktives und ansprechendes Design ein wichtiger Anreiz zur regelmäßigen Nutzung einer mhealth-App ist (106). In ihrer Krankheitsaktivitätsmonitoring-App für Kinder mit Asthma gestalteten die App-Entwickler die monatlich auszufüllende Symptom-Abfrage beispielsweise im Stil eines WhatsApp-Chats (106). Auch können interaktive Funktionen, die dem Patienten direktes Feedback geben, die Nutzung positiv beeinflussen(107); wie beispielsweise die Funktion zur Erinnerung an das Bearbeiten der Symptomabfrage (103, 108) in Form einer Push-Up-Benachrichtigung. Auch scheint die Frequenz, mit der der Patient Angaben in der App machen soll, Auswirkungen auf die regelmäßige Nutzung zu haben (106). Hier konnte gezeigt werden, dass monatliche wie auch wöchentliche Abfragen gut von Patienten akzeptiert werden, jedoch in Bezug auf die Datenvollständigkeit Mängel aufweisen können. Ein-monatige Abstände der Symptom-Abfrage bei Asthma bronchiale, wie in der von Mayoral et al. getesteten App, scheinen den Vorteil zu haben, dass die Patienten mehr Zeit für die Bearbeitung haben; allerdings können durch mangelnde Routine aufgrund der größeren Abfrage-Abstände leichter Dokumentationslücken entstehen (106). Wöchentliche Abfragen mit einem jeweiligen Zeitfenster von 48 Stunden zur Bearbeitung, erzielten eine gute Compliance, führten aber ebenfalls zu Dokumentationslücken, wenn kein nachträgliches Eintragen bei Versäumnis der 48-Stunden-Frist möglich war (105). Ein weiterer Anreiz zur Nutzung könnte die Möglichkeit der App-Funktion ohne mobile Daten sein. Werden die Daten nur übertragen, wenn sich das Smartphone in einem WLAN-Netzwerk befindet, sind Eintragungen in der App immer und überall möglich, ohne, dass der Patient Sorge haben muss, mit höheren Kosten verbundene mobile Daten in Anspruch nehmen zu müssen (106).

Allerdings ist nicht allein die Nutzung der App durch den Patienten aufgrund hoher Benutzerfreundlichkeit wichtig, sondern die erhobenen Daten sollten auch für den behandelnden Arzt, der die App verordnet, im Klinikalltag für die optimierte Patientenversorgung nutzbar sein. Daher ist eine

datenschutzkonforme Integration der Monitoring-Daten in den Behandlungsablauf und den Arbeitsalltag des Arztes unabdingbar (105). Es sollten zusätzliche elektronische Plattformen zur Darstellung der Daten vermieden werden, um den zeitlichen Aufwand der Datenabfrage möglichst gering zu halten (106). Idealerweise sollte die App über eine Schnittstelle verfügen, die die Integration der Daten aus der App in die elektronische Patientenakte des Patienten ermöglicht (105, 109). Nachteil dieser Schnittstellen sind der hohe technische und finanzielle Aufwand (106).

Neben der Benutzerfreundlichkeit für Patient und Arzt kommt dem Nutzen der App eine wichtige Bedeutung zu. Gandrup et al. untersuchte verschiedene Varianten, wie, in der App erfasste Patientendaten, sinnvoll in die elektronische Patientenakte integriert werden könnten (110). Dabei wurden drei Varianten mit unterschiedlichen Implikationen für die Patientenversorgung identifiziert(110). In Variante eins sieht der Arzt die in der App erhobenen Daten erst unmittelbar vor oder während der Sprechstunde in der elektronischen Patientenakte. In dieser Variante dient die App lediglich einer reinen Dokumentation, ähnlich wie es in einem Papiertagebuch wie dem *myAIDA* der Fall ist. In der „Warnungsbasierten“ Variante erhält das behandelnde Team zusätzlich eine elektronische Warnung, wenn der in der App ermittelte Score einen festgelegten Wert übersteigt. So hat der Arzt die Möglichkeit, Exazerbationen direkt zu erkennen und gegebenenfalls direkt Kontakt zum Patienten aufzunehmen. In der dritten Variante wird auf eine kontinuierliche Erfassung verzichtet, der Patient erhält nur im „On-demand“ Modus z.B. alle 3, 6 oder 9 Monate einen Fragebogen zur Symptom-Abfrage. Wird auch hier ein vordefinierter Wert überstiegen, erscheint der Patient in einer Warnliste und der Arzt entscheidet je nach Dringlichkeit, wann der Patient zur nächsten Visite gesehen werden sollte (110). In Variante zwei und drei geht die Dokumentation der Symptome/Krankheitsaktivität mit einem unmittelbaren Effekt auf die medizinische Behandlung außerhalb der Sprechstunden einher.

Dies kann gemäss Rudin et al. zu einem erhöhten Arbeitsaufwand für die Ärzte durch vermehrte Telefonate führen (105). Allerdings besteht so der Vorteil, dass

frühzeitig medizinisch indizierte Interventionen (z.B. Therapieanpassungen) noch vor der eigentlichen Sprechstunde erfolgen können bzw. bei fehlenden Beschwerden nicht notwendige Sprechstundentermine verschoben werden können und eine personalisierte Medizin ermöglicht wird.

Seppen et al. entwickelten eine App zum Krankheitsaktivitätsmonitoring bei rheumatologischen und muskuloskelettalen Erkrankungen (83). Die App wurde im Rahmen zweier Feasibility-Studien als klar und einfach zu bedienen bewertet und erzielte einen SUS Score von 76 bei der ersten und 71 bei der zweiten Pilotstudie (Amerikanische Schulnote B, Prozentrang von 74-77(88) ([Tabelle 1](#)). So dass der App das Potential einer aussagekräftigen Übersicht über den Krankheitsaktivitätsverlauf mit personalisierter Sprechstundenplanung zugesprochen wurde (83). Schougaard et al. untersuchte eine auf App-Monitoring-Daten basierte Sprechstundenplanung im Vergleich zu fixen Sprechstundenintervallen, konnte allerdings keine Einsparung von Terminen bzw. signifikante Unterschiede in der Patientenzufriedenheit zeigen (111). Wichtig ist allerdings, die oben beschriebenen Sprechstundenkonzepte in Bezug auf die Erkrankung zu bewerten. Während bei Patienten mit chronischen Schmerzen (Kopfschmerzen, Rückenschmerzen etc.) die Sprechstundenplanung sehr gut allein auf Angabe der Beschwerden und dem subjektiven Wohlbefinden des Patienten erfolgen könnte, kann bei Patienten mit AID auch ohne Fieber und typischen Schubsymptomen unkontrollierte Entzündung vorliegen. Dies zeigt, dass die Sprechstundenplanung am Krankheitsbild orientierend erfolgen sollte. Eine signifikante Verbesserung der Patientenzufriedenheit und Krankheitsaktivitätskontrolle allein durch Nutzung einer Krankheitsaktivitätsmonitoring-App konnten Lee et al. (112) in ihrer 6-monatigen Pilotstudie nicht feststellen. Die Krankheitsaktivitäts-Scores der Interventionsgruppe mit App zeigten keine signifikant besseren Entwicklungen im Vergleich zur Kontrollgruppe ohne App-Monitoring. Allerdings scheint die Kombination aus App und Arztkontakt zu einem verbesserten Outcome insbesondere bei chronischen Erkrankungen zu führen (113). Austin et al. (103) konnten zeigen, dass die Patienten sich in der Visite durch die Besprechung der in der App erhobenen Daten einbezogen und gesehen fühlten und

Krankheitsmuster und Schubtrigger besser detektiert werden konnten (103). Als besonders geeignet für das App-basierte Monitoring scheinen Patienten zu sein, die sich in einem frühen Stadium der chronischen Erkrankung befinden und besonders vom T2T Therapieprinzip profitieren; außerdem junge, engagierte Patienten, die sehr Technologie-affin sind und solche, die weite und komplizierte Anfahrten zu den Kliniken haben (107). Das App-basierte Monitoring ist außerdem sowohl für Patienten mit häufigen Krankheitsschüben und erhöhtem Monitoring-Bedarf als auch für Patienten mit stabil niedriger Krankheitsaktivität geeignet. Bei Ersteren kann so im Ernstfall schneller eingegriffen werden, bei Letzteren kann gegebenenfalls auf häufige Klinik-Visiten verzichtet werden (107).

Ein Ziel des App-basierten Krankheitsaktivitätsmonitorings ist die verbesserte Krankheitsaktivitätskontrolle. Dies konnte nicht nur im Bereich der Rheumatologie, sondern bereits bei Patienten mit einer Vielzahl von chronischen Erkrankungen wie beispielsweise Herzinsuffizienz, Diabetes mellitus, Arterielle Hypertension oder chronisch entzündliche Darmerkrankung gezeigt werden (107, 114-119). Eine als nützlich wahrgenommene App hat das Potential, die Versorgung von chronisch kranken Patienten zu optimieren, sie kann aber neben der verbesserten Krankheitsaktivitätskontrolle auch Patienten-Empowerment und Selbstmanagement fördern (107). So konnte Vanderboom et al. (120) zeigen, dass Fibromyalgie-Patienten durch die Symptombdokumentation über die Zeit im Selbstmanagement befähigt wurden. Auch bei Patienten mit Diabetes mellitus konnte gezeigt werden, dass App-basiertes Symptom- und Blutzucker-Monitoring zu einem verbesserten Selbstmanagement im Zuge der chronischen Erkrankung führen kann (121). Laut van Riel et al. ändert sich damit auch die Arzt-Rolle, weg vom als „alt-modisch“ angesehenen paternalistischen Modell der Arzt-Patienten-Beziehung hin zu einer Art Coach, die dem Patienten hilft, seine eigene chronische Krankheit gut zu managen (114).

Auch 71% der befragten Kinder- und Hausärzte der oben beschriebenen Niedergelassenenstudie zur Akzeptanz von Telemedizin bei AID denken, dass



die Einführung der App *arcTmobile* zur Verbesserung der Gesundheitskompetenz von Betroffenen und ihren Familien beitragen kann. Wenn die App *arcTmobile* durch größere Benutzerfreundlichkeit und Praktikabilität im Alltag, im Vergleich zum vormals genutzten Papier-Beschwerdetagebuch *myAIDAI*, den Anreiz setzt, regelmäßiger und ausführlicher Symptome und Krankheitsaktivität zu dokumentieren, könnte die App-basierte Symptombdokumentation auch zum verbesserten Selbstmanagement der Patienten mit AID beitragen. Wichtig ist, dass die App von den Nutzern als benutzerfreundlich und nützlich wahrgenommen wird, besonders entscheidend sind dabei ansprechendes Design, Funktion mit direktem Feedback an den Benutzer und Erinnerungsbenachrichtigungen. Außerdem sollte durch das Modell der Arbeitsablauf im Klinik-Alltag nicht gestört werden, dies lässt sich vor allem durch die direkte Integration der Monitoring-Daten in die elektronische Patientenakte realisieren. Diese Aspekte sollten bei Entwicklung, Evaluation und Implementierung von Krankheitsaktivitätsmonitoring-Apps berücksichtigt werden, um die regelmäßige Nutzung zu gewährleisten.

#### 4.2 Machbarkeit und Akzeptanz von telemedizinischen Expertenkonsilen und Videosprechstunden

AID sind seltene, chronische, teilweise lebensbedrohliche Erkrankungen, die eine Betreuung durch AID-Experten benötigen. In Deutschland gibt es nur wenige AID-Zentren, was in Wartelisten und langen Anreisen für die Patienten resultiert. Gleichzeitig sind diese Patienten aber auch auf eine gute Basisversorgung (Vorsorge-Untersuchungen, Impfungen, Infektions-Management etc.) und eine ärztliche Begleitung heimatnah angewiesen. Da insbesondere Notfallsituationen heimatnah versorgt werden müssen, jedoch den Primärversorgern oft spezifisches Wissen im AID-Bereich fehlt, entstehen Unsicherheiten bei Arzt und Patient mit möglicher Fehleinschätzung und daraus resultierenden Komplikationen. Viele der niedergelassenen Kinder- und Hausärzte wünschen sich daher mehr Unterstützung vor Ort im Management der AID-Patienten. Expertenkonsile in Form von Videosprechstunden mit AID-

Experten aus spezialisierten Zentren für niedergelassene Kinder- und Hausärzte könnten die wohnortnahe Versorgung von AID-Patienten verbessern.

Bisher gibt es in Deutschland kein telemedizinisches Versorgungsmodell im Bereich der AID, allerdings gibt es bereits etablierte Konzepte von telemedizinischen Expertenkonsilen aus anderen medizinischen Fachbereichen. Die Radiologie zählt dabei zu einem der ersten Fachgebiete, in denen die Machbarkeit telemedizinischer Expertenkonsile in Form der Teleradiologie gezeigt werden konnte (122). Bei der Teleradiologie wird die Interpretation von bildgebenden Untersuchungen in einer anderen Einrichtung durchgeführt (123). Teleradiologie ist mittlerweile fester Bestandteil im Bereich der modernen Radiologie und ermöglicht eine großflächige geografische Abdeckung, eine Versorgung nach Feierabend und an den Wochenenden und spezielle radiologische Diagnostik für Patienten ohne Zugang zu spezialisierten Zentren (124). Die größten Herausforderungen sind bislang noch Verknüpfungen und Zugänge zur elektronischen Patientenakte der Patienten, die Qualitätssicherung, hohe Kosten der Instandhaltung und Unterstützung bei technischen Problemen (123, 124). Auch in der Dermatologie gibt es während der Covid-19 Pandemie weiter ausgebaut internationale telemedizinische Konzepte (125). Im deutschen TeleDerm-Projekt werden beispielsweise mittels standardisierter Befunddokumentation vom Hausarzt Bildmaterial (Foto des Hautbefundes und/oder Teledermatoskopie), Patientenangaben und Fragestellung in eine entsprechende Maske der Plattform eingegeben und an einen Dermatologen übermittelt (126). Teledermatologie kann Ungleichheiten beim Zugang zur Gesundheitsversorgung, insbesondere in unterversorgten Gruppen ausgleichen (125, 127). Auch wenn momentan noch nicht flächendeckend die technischen Voraussetzungen geschaffen sind, könnten Telekonsile eine wichtige Rolle in der Gewährleistung eines gleichberechtigten Zugangs zu dermatologischer Grundversorgung spielen (127). Pharmakologische telemedizinische Expertenkonsile konnten in einer Intensivstation an der Universitätsklinik der RWTH Aachen erfolgreich

implementiert werden. Über die telemedizinische Plattform kontrollieren Pharmakologen die Medikation der Patienten (128). Probleme bezüglich Medikamenten-Interaktion und Dosisanpassung mit dem Fokus auf Nieren- und Leberversagen können so gezielt von Experten via Telekonsil identifiziert und gelöst werden (128). Neben telemedizinischen Online-Plattformen zum Austausch von Bildmaterial und Optimierung der Therapie sind auch Videosprechstunden bedeutend. Hier besteht der Vorteil in der visuellen Interaktion zwischen Arzt und Patient. So können Hautbefunde und Gelenkschwellungen direkt demonstriert werden und der Arzt kann einen Eindruck über den Allgemeinzustand des Patienten in der Videosprechstunde gewinnen (71). Für die Machbarkeit von Videosprechstunden sind einige technische Voraussetzungen entscheidend. Neben der Registrierung bei einem zertifizierten Videokonferenzanbieter ist eine stabile Internetverbindung und gute Bild- und Tonqualität wichtig (71). Zudem müssen Arzt und Patient mit dem technischen Equipment und Ablauf vertraut sein. Dazu kommen organisatorische Gegebenheiten wie die Versendung der Einladungsmail inklusive Link zur Videosprechstunde, die Terminierung der Videosprechstunde im Klinik- und Praxisalltag und die schriftliche Dokumentation in der elektronischen Patientenakte (65). Zum jetzigen Zeitpunkt gibt es allerdings noch keine internationalen Leitlinien zur Etablierung von telemedizinischen Konsilen (125). In unserer Niedergelassenenstudie gaben 56,5% (35/62) der Teilnehmenden an, bereits über die technische Ausrüstung für Videosprechstunden zu verfügen. In einigen Praxen müssten also zunächst noch die notwendigen technischen Voraussetzungen geschaffen werden.

Über die Akzeptanz von telemedizinischen Konsilen und Videosprechstunden im Bereich der AID gibt es bislang keine Daten. Anwendungsbeispiele aus anderen Fachbereichen zeigen aber, dass Versorgungsmodelle mit Videosprechstunden gut akzeptiert werden (129-136). Mann et al. beobachtete zu Beginn der Covid-19-Pandemie, dass die Zufriedenheit seiner Patienten in Bezug auf Videosprechstunden im Vergleich zu Vor-Ort-Sprechstunden vor der Pandemie nahezu unverändert war (134). In der qualitativen Analyse von

Donaghy et al. (130) konnten gute Erfahrungen mit Videosprechstunden beobachtet werden. Patienten und Ärzte bevorzugten Videosprechstunden vor Telefonsprechstunden, bemängelten allerdings häufige technische Probleme. Besonders akzeptiert waren die Videosprechstunden unter Berufstätigen und Patienten mit Mobilitäts- oder psychischen Gesundheitsproblemen. Die befragten Ärzte gaben an, dass Videosprechstunden für den Routineeinsatz noch zuverlässiger werden und in die Terminsysteme der Klinik integriert werden müssten. Sowohl Ärzte als auch Patienten waren sich einig, dass bei komplexen und sensiblen Fragestellungen Face-to-Face-Sprechstunden präferiert werden sollten (130). Almathami et al. (133) untersuchte in einem Review die Faktoren, die die Nutzung von Videosprechstunden am meisten beeinflussen. Kosteneinsparung, einfache Nutzung, Möglichkeit der Patientenschulung, verminderte Anreisezeiten und Internet- und Smartphone-Verfügbarkeit waren die am häufigsten genannten Faktoren (133). Die größten Hindernisse stellen langsame Internetverbindung, schlechte Video- und Audio-Qualität, Widerstand gegen Technik und Fragen der Kostenerstattung dar (132, 133). Problematisch ist auch der nicht gleichberechtigte Zugang zu Telemedizin durch digitale Barrieren in Gruppen mit niedrigerem sozio-ökonomischem Status (137, 138). Für die langfristige Implementierung von Videosprechstunden im Gesundheitssystem sind laut James et al. (132) Führungspersönlichkeiten, welche die Telemedizin vorantreiben wollen, wichtig; außerdem geeignete Abrechnungsmodelle und nicht zuletzt benutzerfreundliche Technologien. Zusätzlich sei eine regelmäßige Anpassung der Technologien und Dienste im Laufe der Zeit entscheidend (132, 139). Aktuell gibt es eine große Vielfalt an Plattformen für Videosprechstunden, mit sehr unterschiedlicher Qualität und Nützlichkeit (133, 140). Engmaschige Evaluationen der Plattformen sind für die zukünftige Entwicklung von effektiven Videosprechstunden-Modellen essenziell (139).

Auch die Akzeptanz von Telerheumatologie wurde schon in einigen Studien untersucht (65, 81, 141-145). In der Studie von Cavagna et al. (81) akzeptierten 78% der Befragten Videosprechstunden im rheumatologischen ambulanten

Setting, 61% der Befragten würden die Videosprechstunde einer Face-to-face-Sprechstunde sogar vorziehen. Die stärksten prädiktiven Faktoren für die Präferenz der Videosprechstunde waren die Entfernung zum Krankenhaus und das Bildungsniveau des Patienten, nicht aber das Alter der Patienten (81). In zwei weiteren Studien, welche die Akzeptanz von Telerheumatologie untersuchten, konnte kein signifikanter Unterschied in der Zufriedenheit von Patienten, die mit Videosprechstunden bzw. üblichen Face-to-face-Sprechstunden behandelt wurden, gefunden werden (141, 142). Laut einer Befragung von Mühlensiepen et al. wird Telerheumatologie von niedergelassenen Rheumatologen und Hausärzten in Deutschland gut akzeptiert (144). Obwohl 74.6% (358/480) der Befragten bislang keine Telemedizin genutzt haben, gaben 62.3% (291/467) an, Telemedizin in Zukunft nutzen zu wollen. Der Bedarf nach telemedizinischer Arzt-Arzt-Interaktion war größer (81,3 % (370/455)), als der nach einer Arzt-Patienten-Interaktion (46,8 % (213/455)) über telemedizinische Tools (144). Im Fall unseres geplanten Versorgungsmodells von Expertenkonsilen mit AID-Experten für Niedergelassene und ihre AID-Patienten würde die Videosprechstunde eine Arzt-Arzt-Patienten Interaktion ermöglichen. Der AID-Experte wird zur Sprechstunde des niedergelassenen Kollegen via Video zugeschaltet, so können körperliche Befunde über Video demonstriert werden, Fragen zu Diagnostik und Therapie gestellt werden und diagnostische Untersuchungen wie Sonografie oder Blutentnahme gleich vor Ort auf Empfehlung des AID-Experten durchgeführt werden. Darüber hinaus würde ein kontinuierlicher Wissenstransfer von universitären Zentren an niedergelassene Kollegen erfolgen. Die vorliegende Niedergelassenenstudie hat eine gute Akzeptanz von Telemedizin bei den befragten Haus- und Kinderärzten deutlich gemacht. Die Auswertung des TAM hat außerdem gezeigt, dass wahrgenommene Nützlichkeit und Benutzerfreundlichkeit die wichtigsten Einflussfaktoren für die Haltung bezüglich Telemedizin sind. Dies konnte auch in den Studien von Rho et al. (143) und Shiferav et al. (145) bestätigt werden. Je einfacher ein System zu nutzen ist, desto nützlicher wird es von den Ärzten wahrgenommen. Die wahrgenommene Nützlichkeit ist wiederum eng damit verknüpft, wie gut das

telemedizinische System in den bestehenden Behandlungsablauf, zur klinischen Umgebung und den Bedürfnissen der Ärzte passt (143, 145).

#### 4.3 Einfluss der Covid-19 Pandemie auf die Entwicklung von telemedizinischen Versorgungsmodellen

Im Rahmen der Covid-19 Pandemie mussten Mitte 2020 auf Grund hoher Infektionsraten elektive Verlaufskontrollen reduziert bzw. pausiert werden. Dies hatte insbesondere für chronische Patienten weitreichende Konsequenzen, da einige Patienten bis zu zwei Routineverlaufskontrollen beim Spezialisten nicht wahrnehmen konnten oder aber primäre Vorstellungen mit dem Ziel der Diagnosestellung und Therapieeinleitung nicht zeitnah stattfinden konnten (146). Um dennoch eine patientenzentrierte Versorgung gewährleisten zu können, wurde die Entwicklung von Telemedizin in vielen medizinischen Bereichen vorangetrieben (137, 139, 147). Auch war vielfach für die Behandler der Austausch und die Fortbildung nur noch über digitale Angebote möglich. Dies führte zu Akzeptanz und Interesse an telemedizinischen Versorgungs- und Kommunikationsmodellen.

Eine Möglichkeit von Arzt-Patienten-Kontakt ohne physischen Kontakt und damit ohne Risiko einer Infektion bot die Telemedizin (148). Durch die Reglementierung und der Verantwortung gegenüber ihren Patienten waren viele Ärzte, die bisher nie über Telefon- oder Videosprechstunden praktiziert haben, gezwungen, entsprechende Kenntnisse zu erwerben. Sun et al. postulieren sogar, dass diese forcierte, teilweise unfreiwillige Auseinandersetzung mit dem Thema Telemedizin zu einem sprunghaften Fortschritt an Technologien geführt hat (134, 149). Während die Vorteile von face-to-face Arzt-Patienten-Kontakten durch die plötzlichen Einschränkungen noch deutlicher zum Ausdruck kamen, sind auch Vorteile der telemedizinischen Technologien deutlich geworden. Sie ermöglichen eine große geografische Abdeckung von medizinischer Versorgung in ländlichen Gebieten mit Fachärzte-Mangel und verhindern lange und aufwändige Anfahrtswege zu spezialisierten Zentren mit potentieller Ansteckungsgefahr in Krankenhäusern und Praxen (150). Eltern werden bei der Organisation von Arztbesuchen ihrer

Kinder entlastet (138) und Wartezeiten vor den Sprechstunden sind kürzer (65). Gleichzeitig kann die weitere Verbreitung des Sars-Cov-2-Virus eingedämmt werden (151). Im Bereich der Onkologie wurden telemedizinische Anwendungen sowohl in Form von Experten-Konsilen als auch in klinischen Visiten Pandemie-bedingt häufig eingesetzt. Diese Erfahrung hat dazu geführt, dass Onkologen Telemedizin gegenüber deutlich positiver eingestellt sind, als noch vor der Pandemie (152). Eine Umfrage in den Niederlanden zeigte, dass vor der Covid-19 Pandemie nur 1% der Befragten Videosprechstunden genutzt hatten, während des Lockdowns nutzten 99% (74/75) Telefonsprechstunden und 9% (7/75) Videosprechstunden in der regulären Nachsorge mit ihren Patienten (153). Drake et al. verglichen die Rate an durchgeführten Video- und Telefonsprechstunden im Zeitraum vor der Pandemie (Juli bis September 2019) mit der Zeit während des Lockdowns (Juli bis September 2020). Während im Zeitraum Juli bis September 2019 99,97% der Sprechstunden face-to-face stattfanden, wurden im gleichen Zeitraum ein Jahr später 76,9% der Sprechstunden via Video und 11,48% telefonisch ausgerichtet (154). Die Zahlen unterschieden sich sehr je nach Fachbereich. Die Psychiatrie nutzte Videosprechstunden mit 98,3% am häufigsten, gefolgt von Endokrinologie (64,9%), Allgemeinmedizin (20,8%), Kardiologie (10%), Orthopädie (4,7%) und Dermatologie (3,2%) (154). Eine Studie von Chu et al. vergleicht den Einsatz von Telemedizin in ländlichen und städtischen Gebieten von Ontario, Kanada vor und während der Covid-19 Pandemie. Vor der Pandemie (2012-2019) lag die Rate konstant bei elf telemedizinischen Visiten pro 1000 Patienten auf dem Land und sieben Visiten pro 1000 Patienten in den Städten (155). Im Juni 2020, drei Monate nach Beginn der weltweiten Covid-19 Pandemie verzeichnete Ontario bereits 147 Visiten pro 1000 Patienten in ländlichen Regionen und 220 Visiten pro 1000 Patienten in den städtischen Gebieten (155). Mariani kommt in einem Literaturreview zum Einfluss von Covid-19 auf die Entwicklungen im Bereich Telemedizin zu dem Schluss, dass sich die aus der Not heraus entwickelten telemedizinischen Versorgungsmodelle auch über die Pandemie hinweg etablieren werden (156). Nittari et al. befürchten dagegen einen Boomerang-Effekt mit Rückgang der telemedizinischen Anwendungen, wenn

Themen wie Datenschutz, technisches Training für Anwender und rechtliche Rahmenbedingungen zur Nutzung nicht verbessert werden (157).

Die Pandemie-bedingten Kontaktbeschränkungen haben dazu geführt, dass alternative telemedizinische Versorgungsmodelle entwickelt und genutzt wurden (158). In der Folge sind Ärzte Telemedizin gegenüber positiver eingestellt und neuen Anwendungen gegenüber offener geworden, was sich auch in der vorliegenden Niedergelassenenstudie angedeutet hat. Die vorhandenen Daten zeigen, dass die Covid-19 Pandemie großen Einfluss auf die Etablierung von telemedizinischen Versorgungsmodellen hat und zugleich eine große Chance für die Weiterentwicklung neuer Konzepte und Technologien sein kann,

#### 4.4 Limitationen

Die vorliegende Arbeit hat Limitationen. Die arcTmobile Pilotstudie hat mit drei Monaten Laufzeit einen recht kurzen Beobachtungszeitraum. Die teilnehmenden Patienten haben zuvor teilweise über Jahre das Krankheitsaktivitätsmonitoring via Papier-Beschwerdetagebuch *myAIDA* genutzt. Im Vergleich dazu ist der Testzeitraum des Krankheitsaktivitätsmonitorings via App arcTmobile eher kurz. Um sich für eventuelle technische Ausfälle der App abzusichern, mussten die Patienten im Rahmen der Pilotstudie ihre Symptome sowohl im Papier-Beschwerdetagebuch als auch in der App parallel dokumentieren. Dies resultierte in einer doppelten Dokumentation, was möglicherweise das Ergebnis beeinflusst haben könnte. Außerdem könnte bei der Auswahl der Studienteilnehmenden ein potenzielles Bias vorliegen, da nur Patienten mit Smartphone und Internetzugang gescreent und eingeschlossen wurden. Daher handelte es sich bei den Studienteilnehmenden um Patienten, die in ihrem Alltag ohnehin modernen Technologien gegenüber aufgeschlossen sind. Eine weitere Limitation stellt die kleine Anzahl von 16 Patienten dar. Da AID zu den seltenen Erkrankungen zählen und es sich um eine Pilotstudie handelt, kann die Anzahl der Patienten aber für den beschriebenen Untersuchungszweck als ausreichend gewertet



werden. Außerdem diskutiert werden sollte die Rücklaufquote der Fragebögen. Sowohl die Pilotstudie *arcTmobile* mit 100%, als auch die Niedergelassenenstudie mit 54%, erzielten durchschnittliche bis überdurchschnittliche Rücklaufquoten. In einer Metaanalyse zur Rücklaufquote von postalischen und web-basierten Befragungen ermittelten Shih et al. 2008 eine durchschnittliche Antwortrate von 45% bei postalisch versendeten Fragebögen (159). Eine 2009 durchgeführte Meta-Analyse zu Rücklaufquoten bei postalischen Befragungen von medizinischen Fachkräften zwischen 1996 und 2005 ergab eine mittlere Rate von 56%. Nur 16% (56/352) der in der Meta-Analyse eingeschlossenen Studien erzielte eine Rücklaufquote von über 75% (160). Bei der von Wangler et al. 2018 durchgeführten Befragung von Hausärzten zur Akzeptanz von Gesundheits-Apps im Bereich Allgemeinmedizin betrug die Rücklaufquote 22% (161). Die Rücklaufquoten der in dieser Dissertation untersuchten Fragebögen sind also im Vergleich als sehr gut zu werten und implizieren eine hohe Bereitschaft und Interesse der Patienten und Niedergelassenen, sich mit der Thematik Telemedizin zu beschäftigen.

#### 4.5 Schlussfolgerung

Die vorliegende Dissertation zeigt, dass ein App-basiertes Krankheitsaktivitätsmonitoring machbar ist und die Versorgung von Patienten mit AID optimieren kann. Die App *arcTmobile*, basierend auf dem Beschwerdetagebuch *myAIDAI*, wurde im Rahmen der Pilotstudie von den Patienten des arcT analog zur Papierversion des *myAIDAI* akzeptiert. Sie zeigte vor allem in den Bereichen Benutzerfreundlichkeit und allgemeine Zufriedenheit Vorteile gegenüber dem Papier-*myAIDAI*. Mit der Weiterentwicklung der App und ergänzt um eine Monatsübersicht, Erinnerungsfunktion und ansprechendem Design für Kinder und Jugendliche, hat die App *arcTmobile* das Potential, das Krankheitsaktivitätsmonitoring zu erleichtern, Patientenempowerment zu fördern und die Versorgung von AID-Patienten zu verbessern.

Außerdem konnte gezeigt werden, dass unter Hausärzten und niedergelassenen Kinderärzten ein großer Bedarf an Unterstützung bei der Versorgung von AID-Patienten besteht. Telemedizinische Videosprechstunden von AID-Experten für Kinder-/Hausärzte und ihre AID-Patienten könnten die wohnortnahe Versorgung optimieren. Die Haltung der Niedergelassenen gegenüber dem geplanten telemedizinischen Versorgungsmodell ist sehr positiv und stark assoziiert mit den Faktoren Benutzerfreundlichkeit und wahrgenommene Nützlichkeit des Videosprechstunden-Konzepts. Eine tendenziell positivere Haltung zeigten jüngere Ärzte und Befragte aus Praxen mit höherem Patientenaufkommen und Praxisstandorten in größeren Städten. Weiter scheint die Covid-19 Pandemie Interesse und Akzeptanz an Telemedizin im Allgemeinen gefördert zu haben. Mit der Evaluation der Akzeptanz und den entsprechenden Einflussfaktoren sind erste Voraussetzungen für die Etablierung eines vielversprechenden telemedizinischen Konzepts mit Expertenkonsilen in der AID-Versorgung geschaffen.

## 5 Zusammenfassung

Autoinflammatorische Erkrankungen (AID) sind seltene chronische Erkrankungen und betreffen Kinder, Jugendliche und Erwachsene. Durch Störungen im angeborenen Immunsystem kommt es zur Ausschüttung von (pro-)inflammatorischen Zytokinen mit wiederkehrenden Krankheitsschüben und systemischer Inflammation. Durch effektive Therapie können Langzeitfolgen verhindert werden. Das Monitoring der Krankheitsaktivität ist ein zentraler Bestandteil im AID-Management. Dazu gehört die tägliche Symptom-Dokumentation durch den Patienten im *myAIDAI*-Beschwerdetagebuch sowie regelmäßige Untersuchungen in der autoinflammatorischen Sprechstunde. Diese werden nur durch wenige Zentren in Deutschland angeboten. Lange Anreisen erschweren die gesundheitliche Chancenungleichheit und eine optimale AID-Versorgung, vor allem in Akutsituationen. Die vorliegende Dissertation untersucht mHealth und telemedizinische Sprechstunden im Bereich der AID, untergliedert in zwei Teilprojekten. Teilprojekt 1 (Pilotstudie *arcTmobile*) beinhaltet die Evaluierung der Nützlichkeit, Benutzerfreundlichkeit und Akzeptanz einer App zum Krankheitsaktivitätsmonitoring für AID-Patienten. Teilprojekt 2 (Niedergelassenenstudie) evaluiert die Akzeptanz von telemedizinischen Sprechstunden für niedergelassene Erstversorger mit AID-Experten.

In der 3-monatigen prospektiven Pilotstudie wurden Patienten  $\geq 2$  Jahre mit FMF, CAPS, HIDS, TRAPS, PFAPA und unklassifizierter AID eingeschlossen. Es erfolgte die Evaluation der Benutzerfreundlichkeit sowie Gebrauchs- und Alltagstauglichkeit der Pilot-App *arcTmobile* mit den Fragebögen (i) System Usability Scale (SUS) und (ii) Usefulness, Satisfaction and Ease of Use (USE). Die prospektive Niedergelassenenstudie untersuchte den Einfluss von Nützlichkeit und Benutzerfreundlichkeit auf Haltung und Intention zur Verwendung von telemedizinischen Sprechstunden. Eingeschlossen wurden Kinder-/Hausärzte, die AID-Patienten mit  $\geq 1$  AID-Zentrums Visite seit 01/2019 betreuen. Neben der Befragung zur subjektiven Kompetenz und Wunsch nach Unterstützung in der AID-Versorgung, wurde die Akzeptanz von

telemedizinischen Sprechstunden basierend auf dem Technology Acceptance Model untersucht. Die Einflussfaktoren wurden mittels Strukturgleichungsmodell geprüft.

In der Pilotstudie *arcTmobile* waren von 16 Patienten (13% FMF, 6% TRAPS, 75% CAPS, 6% unklassifizierte AID) 50% weiblich. Eine Interleukin (IL)-1 Inhibition hatten 88 %, 12 % eine IL-6 Inhibition. Das Durchschnittsalter lag bei 17,6 Jahren (4,2–53,1 Jahre). In der Auswertung der USE-Fragebögen erreichte das Papierbeschwerdetagebuch *myAIDAI* in der Kategorie Nützlichkeit (UU) höhere Mittelwerte, die App *arcTmobile* in den Kategorien Benutzerfreundlichkeit (UE), leichte Erlernbarkeit (UL) und Zufriedenheit (US). Im SUS-Fragebogen erreichte die App einen Score von 81,6; das entspricht im Perzentilen Ranking einer amerikanischen Schulnote A. In der Niedergelassenenstudie waren 87 % der Teilnehmer Pädiater, 10 % Allgemeinmediziner und 3 % Internisten; 40 % waren weiblich. In der AID-Behandlung fühlten sich 27,4 % (sehr) unsicher, 27,4% (sehr) sicher; 45,2% neutral. Mehr Unterstützung durch AID-Experten wünschten sich 71 %. Über die technische Ausrüstung für telemedizinische Sprechstunden verfügten 56 % der Befragten. 64 % gaben eine positive Haltung ( $\geq 5/7$  Punkte) gegenüber telemedizinischen Sprechstunden zur AID-Betreuung an, 60 % würden sie in der Praxis nutzen ( $\geq 5/7$  Punkte). Die Benutzerfreundlichkeit zeigte eine signifikante Assoziation mit der wahrgenommenen Nützlichkeit ( $\beta = 0,66$ ;  $p < 0,001$ ). Die wahrgenommene Nützlichkeit war positiv mit der Haltung zu telemedizinischen Sprechstunden assoziiert ( $\beta=0,98$ ;  $p < 0,001$ ). Benutzerfreundlichkeit und Nützlichkeit erklärten 94 % der Varianz der Haltung zu telemedizinischen Sprechstunden ( $R^2 = 0,94$ ). Die wahrgenommene Nützlichkeit kombiniert mit der Haltung erklärten 93 % der Varianz bei der Intention eine telemedizinische Sprechstunde zu nutzen ( $R^2 = 0,93$ ).

Die vorliegende Dissertation konnte erstmals zeigen, dass App-basiertes Krankheitsaktivitätsmonitoring und telemedizinische Sprechstunden für niedergelassene Erstversorger mit AID-Experten von Patienten bzw. Niedergelassenen akzeptiert werden und das Potential haben, die AID-Versorgung in Zukunft zu verbessern.

## 6 Literaturverzeichnis

1. Broderick L. Hereditary Autoinflammatory Disorders: Recognition and Treatment. *Immunol Allergy Clin North Am.* 2019;39(1):13-29.
2. Sarabay G, Touitou I. Autoinflammation. Management of hereditary recurrent fevers--SHARE experience. *Nat Rev Rheumatol.* 2015;11(10):567-9.
3. Lachmann HJ. Periodic fever syndromes. *Best Pract Res Clin Rheumatol.* 2017;31(4):596-609.
4. Hashkes PJ, Laxer RM, Simon A. *Textbook of autoinflammation*: Springer; 2019.
5. A candidate gene for familial Mediterranean fever. *Nat Genet.* 1997;17(1):25-31.
6. McDermott MF, Aksentjevich I, Galon J, McDermott EM, Ogunkolade BW, Centola M, et al. Germline Mutations in the Extracellular Domains of the 55 kDa TNF Receptor, TNFR1, Define a Family of Dominantly Inherited Autoinflammatory Syndromes. *Cell.* 1999;97(1):133-44.
7. Kastner DL. Autoinflammation: past, present, and future. *Textbook of Autoinflammation*: Springer; 2019. p. 3-15.
8. Drenth JPH, Cuisset L, Grateau G, Vasseur C, van de Velde-Visser SD, de Jong JGN, et al. Mutations in the gene encoding mevalonate kinase cause hyper-IgD and periodic fever syndrome. *Nature Genetics.* 1999;22(2):178-81.
9. Houten SM, Kuis W, Duran M, de Koning TJ, van Royen-Kerkhof A, Romeijn GJ, et al. Mutations in MVK, encoding mevalonate kinase, cause hyperimmunoglobulinaemia D and periodic fever syndrome. *Nature Genetics.* 1999;22(2):175-7.
10. Hoffman HM, Mueller JL, Broide DH, Wanderer AA, Kolodner RD. Mutation of a new gene encoding a putative pyrin-like protein causes familial cold autoinflammatory syndrome and Muckle-Wells syndrome. *Nature Genetics.* 2001;29(3):301-5.
11. Aksentjevich I, Nowak M, Mallah M, Chae JJ, Watford WT, Hofmann SR, et al. De novo CIAS1 mutations, cytokine activation, and evidence for genetic heterogeneity in patients with neonatal-onset multisystem inflammatory disease (NOMID): A new member of the expanding family of pyrin-associated autoinflammatory diseases. *Arthritis & Rheumatism.* 2002;46(12):3340-8.

12. Feldmann J, Prieur A-M, Quartier P, Berquin P, Certain S, Cortis E, et al. Chronic Infantile Neurological Cutaneous and Articular Syndrome Is Caused by Mutations in CIAS1, a Gene Highly Expressed in Polymorphonuclear Cells and Chondrocytes. *The American Journal of Human Genetics*. 2002;71(1):198-203.
13. Broderick L, De Nardo D, Franklin BS, Hoffman HM, Latz E. The inflammasomes and autoinflammatory syndromes. *Annu Rev Pathol*. 2015;10:395-424.
14. Medzhitov R. Origin and physiological roles of inflammation. *Nature*. 2008;454(7203):428-35.
15. Gregersen PK, Olsson LM. Recent Advances in the Genetics of Autoimmune Disease. *Annual Review of Immunology*. 2009;27(1):363-91.
16. Kallinich T, Hinze C, Wittkowski H. [Classification of autoinflammatory diseases based on pathophysiological mechanisms]. *Z Rheumatol*. 2020;79(7):624-38.
17. [https://www.orpha.net/consor/cgi-bin/OC\\_Exp.php?Lng=GB&Expert=342](https://www.orpha.net/consor/cgi-bin/OC_Exp.php?Lng=GB&Expert=342). FMF, acces date 22.08.2022.
18. Ben-Chetrit E, Touitou I. Familial mediterranean Fever in the world. *Arthritis Rheum*. 2009;61(10):1447-53.
19. de Torre-Minguela C, Mesa del Castillo P, Pelegrín P. The NLRP3 and Pypin Inflammasomes: Implications in the Pathophysiology of Autoinflammatory Diseases. *Frontiers in Immunology*. 2017;8.
20. Yalçinkaya F, Özen S, Özçakar ZB, Aktay N, Çakar N, Düzova A, et al. A new set of criteria for the diagnosis of familial Mediterranean fever in childhood. *Rheumatology*. 2009;48(4):395-8.
21. Twig G, Livneh A, Vivante A, Afek A, Shamiss A, Derazne E, et al. Mortality risk factors associated with familial Mediterranean fever among a cohort of 1.25 million adolescents. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2014;73(4):704-9.
22. Livneh A, Langevitz P, Zemer D, Zaks N, Kees S, Lidar T, et al. Criteria for the diagnosis of familial mediterranean fever. *Arthritis & Rheumatism*. 1997;40(10):1879-85.
23. Berkun Y, Eisenstein EM. Diagnostic criteria of familial Mediterranean fever. *Autoimmunity Reviews*. 2014;13(4):388-90.

24. Ben-Chetrit E, Gattorno M, Gul A, Kastner DL, Lachmann HJ, Touitou I, et al. Consensus proposal for taxonomy and definition of the autoinflammatory diseases (AIDs): a Delphi study. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2018;77(11):1558-65.
25. Hoffman HM, Kuehmerle-Deschner JB, Goldbach-Mansky R. Cryopyrin-associated periodic syndromes (CAPS). *Textbook of Autoinflammation*: Springer; 2019. p. 347-65.
26. Lee G-S, Subramanian N, Kim AI, Aksentijevich I, Goldbach-Mansky R, Sacks DB, et al. The calcium-sensing receptor regulates the NLRP3 inflammasome through Ca<sup>2+</sup> and cAMP. *Nature*. 2012;492(7427):123-7.
27. Park YH, Wood G, Kastner DL, Chae JJ. Pyrin inflammasome activation and RhoA signaling in the autoinflammatory diseases FMF and HIDS. *Nature Immunology*. 2016;17(8):914-21.
28. van der Burgh R, ter Haar NM, Boes ML, Frenkel J. Mevalonate kinase deficiency, a metabolic autoinflammatory disease. *Clinical Immunology*. 2013;147(3):197-206.
29. Williamson L, Hull D, Mehta R, Reeves W, Robinson B, Toghiani P. Familial hibernian fever. *QJM: An International Journal of Medicine*. 1982;51(4):469-80.
30. Hull KM, Drewe E, Aksentijevich I, Singh HK, Wong K, McDermott EM, et al. The TNF receptor-associated periodic syndrome (TRAPS): emerging concepts of an autoinflammatory disorder. *Medicine*. 2002;81(5):349-68.
31. Lachmann HJ, Papa R, Gerhold K, Obici L, Touitou I, Cantarini L, et al. The phenotype of TNF receptor-associated autoinflammatory syndrome (TRAPS) at presentation: a series of 158 cases from the Eurofever/EUROTRAPS international registry. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2014;73(12):2160-7.
32. Gaggiano C, Vitale A, Obici L, Merlini G, Soriano A, Viapiana O, et al. Clinical features at onset and genetic characterization of pediatric and adult patients with TNF- $\alpha$  Receptor—Associated Periodic Syndrome (TRAPS): A series of 80 cases from the AIDA Network. *Mediators of Inflammation*. 2020;2020.
33. Lachmann HJ, Papa R, Gerhold K, Obici L, Touitou I, Cantarini L, et al. The phenotype of TNF receptor-associated autoinflammatory syndrome (TRAPS) at presentation: a series of 158 cases from the Eurofever/EUROTRAPS international registry. *Annals of the rheumatic diseases*. 2014;73(12):2160-7.
34. Gaggiano C, Rigante D, Sota J, Grosso S, Cantarini L. Treatment options for periodic fever, aphthous stomatitis, pharyngitis, and cervical adenitis (PFAPA)

syndrome in children and adults: a narrative review. *Clin Rheumatol.* 2019;38(1):11-7.

35. Asna Ashari K, Rezaei N. PFAPA (periodic fever, aphthous stomatitis, pharyngitis, and adenitis) syndrome: an overview of genetic background. *Clin Rheumatol.* 2021;40(11):4437-44.

36. Gattorno M, Hofer M, Federici S, Vanoni F, Bovis F, Aksentijevich I, et al. Classification criteria for autoinflammatory recurrent fevers. *Ann Rheum Dis.* 2019;78(8):1025-32.

37. Thomas KT, Feder HM, Jr., Lawton AR, Edwards KM. Periodic fever syndrome in children. *J Pediatr.* 1999;135(1):15-21.

38. Toubitou I, Aksentijevich I. Genetic approach to the diagnosis of autoinflammatory diseases. *Textbook of Autoinflammation: Springer; 2019.* p. 225-37.

39. Kosukcu C, Taskiran EZ, Batu ED, Sag E, Bilginer Y, Alikasifoglu M, et al. Whole exome sequencing in unclassified autoinflammatory diseases: more monogenic diseases in the pipeline? *Rheumatology (Oxford).* 2021;60(2):607-16.

40. Toplak N, Frenkel J, Ozen S, Lachmann HJ, Woo P, Koné-Paut I, et al. An International registry on Autoinflammatory diseases: the Eurofever experience. *Annals of the Rheumatic Diseases.* 2012;71(7):1177-82.

41. Welzel T, Benseler SM, Kuemmerle-Deschner JB. Management of Monogenic IL-1 Mediated Autoinflammatory Diseases in Childhood. *Front Immunol.* 2021;12:516427.

42. Ter Haar NM, Oswald M, Jeyaratnam J, Anton J, Barron KS, Brogan PA, et al. Recommendations for the management of autoinflammatory diseases. *Annals of the rheumatic diseases.* 2015;74(9):1636-44.

43. Richards S, Aziz N, Bale S, Bick D, Das S, Gastier-Foster J, et al. Standards and guidelines for the interpretation of sequence variants: a joint consensus recommendation of the American College of Medical Genetics and Genomics and the Association for Molecular Pathology. *Genetics in medicine.* 2015;17(5):405-23.

44. Gattorno M, Hofer M, Federici S, Vanoni F, Bovis F, Aksentijevich I, et al. Classification criteria for autoinflammatory recurrent fevers. *Annals of the Rheumatic Diseases.* 2019;78(8):1025-32.



45. Kuemmerle-Deschner JB, Ozen S, Tyrrell PN, Kone-Paut I, Goldbach-Mansky R, Lachmann H, et al. Diagnostic criteria for cryopyrin-associated periodic syndrome (CAPS). *Annals of the rheumatic diseases*. 2017;76(6):942-7.
46. Smolen JS. Treat-to-target: rationale and strategies. *Clin Exp Rheumatol*. 2012;30(4 Suppl 73):S2-6.
47. ter Haar NM, Oswald M, Jeyaratnam J, Anton J, Barron KS, Brogan PA, et al. Recommendations for the management of autoinflammatory diseases. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2015;74(9):1636-44.
48. Ozen S, Demirkaya E, Erer B, Livneh A, Ben-Chetrit E, Giancane G, et al. EULAR recommendations for the management of familial Mediterranean fever. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2016;75(4):644-51.
49. De Benedetti F, Gattorno M, Anton J, Ben-Chetrit E, Frenkel J, Hoffman HM, et al. Canakinumab for the Treatment of Autoinflammatory Recurrent Fever Syndromes. *New England Journal of Medicine*. 2018;378(20):1908-19.
50. Kuemmerle-Deschner JB, Hofer F, Endres T, Kortus-Goetze B, Blank N, Weißbarth-Riedel E, et al. Real-life effectiveness of canakinumab in cryopyrin-associated periodic syndrome. *Rheumatology*. 2015;55(4):689-96.
51. Welzel T, Ellinghaus M, Wildermuth AL, Deschner N, Benseler SM, Kuemmerle-Deschner JB. Colchicine Effectiveness and Safety in Periodic Fever, Aphthous Stomatitis, Pharyngitis, and Adenitis. *Front Pediatr*. 2021;9:759664.
52. Ozen S, Kuemmerle-Deschner JB, Cimaz R, Livneh A, Quartier P, Kone-Paut I, et al. International Retrospective Chart Review of Treatment Patterns in Severe Familial Mediterranean Fever, Tumor Necrosis Factor Receptor–Associated Periodic Syndrome, and Mevalonate Kinase Deficiency/Hyperimmunoglobulinemia D Syndrome. *Arthritis Care & Research*. 2017;69(4):578-86.
53. Kostjukovits S, Kalliokoski L, Antila K, Korppi M. Treatment of hyperimmunoglobulinemia D syndrome with biologics in children: review of the literature and Finnish experience. *European Journal of Pediatrics*. 2015;174(6):707-14.
54. Koné-Paut I, Galeotti C. Current treatment recommendations and considerations for cryopyrin-associated periodic syndrome. *Expert Review of Clinical Immunology*. 2015;11(10):1083-92.

55. Kullenberg T, Löfqvist M, Leinonen M, Goldbach-Mansky R, Olivecrona H. Long-term safety profile of anakinra in patients with severe cryopyrin-associated periodic syndromes. *Rheumatology*. 2016;55(8):1499-506.
56. Gülez N, Makay B, Sözeri B. Long-term effectiveness and safety of canakinumab in pediatric familial Mediterranean fever patients. *Modern Rheumatology*. 2020;30(1):166-71.
57. Duzova A, Bakkaloglu A, Besbas N, Topaloglu R, Ozen S, Ozaltin F, et al. Role of A-SAA in monitoring subclinical inflammation and in colchicine dosage in familial Mediterranean fever. *Clin Exp Rheumatol*. 2003;21(4):509-14.
58. Piram M, Koné-Paut I, Lachmann HJ, Frenkel J, Ozen S, Kuemmerle-Deschner J, et al. Validation of the Auto-Inflammatory Diseases Activity Index (AIDAI) for hereditary recurrent fever syndromes. *Annals of the Rheumatic Diseases*. 2014;73(12):2168-73.
59. Piram M, Frenkel J, Gattorno M, Ozen S, Lachmann HJ, Goldbach-Mansky R, et al. A preliminary score for the assessment of disease activity in hereditary recurrent fevers: results from the AIDAI (Auto-Inflammatory Diseases Activity Index) Consensus Conference. *Ann Rheum Dis*. 2011;70(2):309-14.
60. Ter Haar NM, Annink KV, Al-Mayouf SM, Amaryan G, Anton J, Barron KS, et al. Development of the autoinflammatory disease damage index (ADDI). *Ann Rheum Dis*. 2017;76(5):821-30.
61. Erbis G, Schmidt K, Hansmann S, Sergiichuk T, Michler C, Kuemmerle-Deschner JB, et al. Living with autoinflammatory diseases: identifying unmet needs of children, adolescents and adults. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2018;16(1):81.
62. [https://apps.who.int/iris/bitstream/handle/10665/20378/WHA58\\_28-en.pdf;jsessionid=6627A7EE47A9A098A68707A902836D9C?sequence=1](https://apps.who.int/iris/bitstream/handle/10665/20378/WHA58_28-en.pdf;jsessionid=6627A7EE47A9A098A68707A902836D9C?sequence=1). Access date 24.08.2022 . 2005.
63. [https://www.bundesaerztekammer.de/fileadmin/user\\_upload/old-files/downloads/pdf-Ordner/Telemedizin/Telematik/Telemedizin/Telemedizinische Methoden in der Patientenversorgung Begriffliche Verortung.pdf](https://www.bundesaerztekammer.de/fileadmin/user_upload/old-files/downloads/pdf-Ordner/Telemedizin/Telematik/Telemedizin/Telemedizinische Methoden in der Patientenversorgung Begriffliche Verortung.pdf). Access date 24.08.2022. 2015.
64. Albrecht U-V. Kapitel Rationale. In: Albrecht, U.-V.(Hrsg.), Chancen und Risiken von Gesundheits-Apps (CHARISMHA). Medizinische Hochschule Hannover, 2016, S. 2–6. 2016.

65. Krusche M, Muhlensiepen F, Aries P, Welcker M, Knitza J. [Telemedicine in rheumatology]. *Z Rheumatol.* 2020;79(9):883-92.
66. Espinoza F, Le Blay P, Coulon D, Lieu S, Munro J, Jorgensen C, et al. Handgrip strength measured by a dynamometer connected to a smartphone: a new applied health technology solution for the self-assessment of rheumatoid arthritis disease activity. *Rheumatology (Oxford).* 2016;55(5):897-901.
67. Mollard E, Michaud K. A Mobile App With Optical Imaging for the Self-Management of Hand Rheumatoid Arthritis: Pilot Study. *JMIR Mhealth Uhealth.* 2018;6(10):e12221.
68. Tabi K, Randhawa AS, Choi F, Mithani Z, Albers F, Schnieder M, et al. Mobile Apps for Medication Management: Review and Analysis. *JMIR Mhealth Uhealth.* 2019;7(9):e13608.
69. Guo Y, Chen Y, Lane DA, Liu L, Wang Y, Lip GYH. Mobile Health Technology for Atrial Fibrillation Management Integrating Decision Support, Education, and Patient Involvement: mAF App Trial. *Am J Med.* 2017;130(12):1388-96.e6.
70. Eustache J, Latimer EA, Liberman S, Charlebois P, Stein B, Fiore JF, Jr., et al. A Mobile Phone App Improves Patient-Physician Communication And Reduces Emergency Department Visits After Colorectal Surgery. *Dis Colon Rectum.* 2021.
71. Rodriguez JA, Betancourt JR, Sequist TD, Ganguli I. Differences in the use of telephone and video telemedicine visits during the COVID-19 pandemic. *Am J Manag Care.* 2021;27(1):21-6.
72. Drop SL, Mure PY, Wood D, El-Ghoneimi A, Faisal Ahmed S. E-consultation for DSD: a global platform for access to expert advice. *J Pediatr Urol.* 2012;8(6):629-32.
73. [https://www.kbv.de/html/1150\\_50419.php](https://www.kbv.de/html/1150_50419.php). Access date 25.08.2022. 2021.
74. Zapata BC, Fernández-Alemán JL, Idri A, Toval A. Empirical studies on usability of mHealth apps: a systematic literature review. *J Med Syst.* 2015;39(2):1.
75. Schnall R, Cho H, Liu J. Health Information Technology Usability Evaluation Scale (Health-ITUES) for Usability Assessment of Mobile Health Technology: Validation Study. *JMIR Mhealth Uhealth.* 2018;6(1):e4.
76. Brooke J. SUS: A quick and dirty usability scale. *Usability Eval Ind.* 1995;189.
77. Hyzy M, Bond R, Mulvenna M, Bai L, Dix A, Leigh S, et al. System Usability Scale Benchmarking for Digital Health Apps: Meta-analysis. *JMIR Mhealth Uhealth.* 2022;10(8):e37290.

78. Lund AM. Measuring usability with the use questionnaire<sup>12</sup>. *Usability interface*. 2001;8(2):3-6.
79. Gao M, Kortum P, Oswald F. Psychometric Evaluation of the USE (Usefulness, Satisfaction, and Ease of use) Questionnaire for Reliability and Validity. *Proceedings of the Human Factors and Ergonomics Society Annual Meeting*. 2018;62(1):1414-8.
80. Holden RJ, Karsh BT. The technology acceptance model: its past and its future in health care. *J Biomed Inform*. 2010;43(1):159-72.
81. Cavagna L, Zanframundo G, Codullo V, Pisu MG, Caporali R, Montecucco C. Telemedicine in rheumatology: a reliable approach beyond the pandemic. *Rheumatology (Oxford)*. 2021;60(1):366-70.
82. Davis FD. Perceived usefulness, perceived ease of use, and user acceptance of information technology. *MIS quarterly*. 1989:319-40.
83. Seppen BF, Wiegel J, L'Ami M J, Duarte Dos Santos Rico S, Catarinella FS, Turkstra F, et al. Feasibility of Self-Monitoring Rheumatoid Arthritis With a Smartphone App: Results of Two Mixed-Methods Pilot Studies. *JMIR Form Res*. 2020;4(9):e20165.
84. Mucke J, Knitza J, Muehlensiepen F, Grahammer M, Stenzel R, Simon D, et al. TELERA-Asynchronous TELEmedicine for Patients With Rheumatoid Arthritis: Study Protocol for a Prospective, Multi-Center, Randomized Controlled Trial. *Front Med (Lausanne)*. 2021;8:791715.
85. Aries P, Welcker M, Callhoff J, Chehab G, Krusche M, Schneider M, et al. [Statement of the German Society for Rheumatology (DGRh) on the use of video consultations in rheumatology]. *Z Rheumatol*. 2020;79(10):1078-85.
86. Kataria S, Ravindran V. Digital health: a new dimension in rheumatology patient care. *Rheumatol Int*. 2018;38(11):1949-57.
87. Tvetter AT, Provan SA, Moholt E, Bergsmark K, Østerås N. Use of video consultations in an outpatient rheumatology clinic. *Tidsskr Nor Laegeforen*. 2021;141(8).
88. Lewis JR. The System Usability Scale: Past, Present, and Future. *International Journal of Human-Computer Interaction*. 2018;34(7):577-90.
89. Sauro J. A practical guide to the system usability scale: Background, benchmarks & best practices. 2011.

90. Sauro J, James R. Lewis. Quantifying the user experience: Practical statistics for user research. Morgan Kaufmann. 2016.
91. Davis FD. A technology acceptance model for empirically testing new end-user information systems: Theory and results: Massachusetts Institute of Technology; 1985.
92. Hu PJ, Chau PY, Sheng ORL, Tam KY. Examining the technology acceptance model using physician acceptance of telemedicine technology. Journal of management information systems. 1999;16(2):91-112.
93. Cham H, Reshetnyak E, Rosenfeld B, Breitbart W. Full Information Maximum Likelihood Estimation for Latent Variable Interactions With Incomplete Indicators. Multivariate Behav Res. 2017;52(1):12-30.
94. Li CH. Confirmatory factor analysis with ordinal data: Comparing robust maximum likelihood and diagonally weighted least squares. Behav Res Methods. 2016;48(3):936-49.
95. Backhaus K, Erichson B, Weiber R. Fortgeschrittene Analysemethoden. Berlin; 2011.
96. Homburg C, Baumgartner H. Beurteilung von kausalmodellen: Bestandsaufnahme und anwendungsempfehlungen. Marketing: Zeitschrift für Forschung und Praxis. 1995:162-76.
97. Yu CY, editor Evaluation of model fit indices for latent variable models with categorical and continuous outcomes. Paper presented at the annual conference of the American Educational Research Association, April 4, 2002, New Orleans; 2002.
98. Onodera R, Sengoku S. Innovation process of mHealth: An overview of FDA-approved mobile medical applications. International journal of medical informatics. 2018;118:65-71.
99. <https://de.statista.com/statistik/daten/studie/585883/umfrage/anteil-der-smartphone-nutzer-in-deutschland/>. Statista, Access date 30.08.2022. 2022.
100. <https://de.statista.com/statistik/daten/studie/1106/umfrage/handybesitz-bei-jugendlichen-nach-altersgruppen/>. Statista, Access date 30.08.2022. 2022.
101. <https://www.statista.com/statistics/1180843/health-related-mobile-apps-worldwide-number-by-focus/> S. Access date 30.08.2022. 2022.
102. Singh K, Drouin K, Newmark LP, Lee J, Faxvaag A, Rozenblum R, et al. Many Mobile Health Apps Target High-Need, High-Cost Populations, But Gaps Remain. Health Aff (Millwood). 2016;35(12):2310-8.

103. Austin L, Sharp CA, van der Veer SN, Machin M, Humphreys J, Mellor P, et al. Providing 'the bigger picture': benefits and feasibility of integrating remote monitoring from smartphones into the electronic health record. *Rheumatology (Oxford)*. 2020;59(2):367-78.
104. Colls J, Lee YC, Xu C, Corrigan C, Lu F, Marquez-Grap G, et al. Patient adherence with a smartphone app for patient-reported outcomes in rheumatoid arthritis. *Rheumatology (Oxford)*. 2021;60(1):108-12.
105. Rudin RS, Fanta CH, Predmore Z, Kron K, Edelen MO, Landman AB, et al. Core Components for a Clinically Integrated mHealth App for Asthma Symptom Monitoring. *Appl Clin Inform*. 2017;8(4):1031-43.
106. Mayoral K, Garin O, Caballero-Rabasco MA, Praena-Crespo M, Bercedo A, Hernandez G, et al. Smartphone App for monitoring Asthma in children and adolescents. *Qual Life Res*. 2021;30(11):3127-44.
107. van Riel P, Alten R, Combe B, Abdulganieva D, Bousquet P, Courtenay M, et al. Improving inflammatory arthritis management through tighter monitoring of patients and the use of innovative electronic tools. *RMD Open*. 2016;2(2):e000302.
108. Graetz I, McKillop CN, Stepanski E, Vidal GA, Anderson JN, Schwartzberg LS. Use of a web-based app to improve breast cancer symptom management and adherence for aromatase inhibitors: a randomized controlled feasibility trial. *J Cancer Surviv*. 2018;12(4):431-40.
109. Ragouzeos D, Gandrup J, Berrean B, Li J, Murphy M, Trupin L, et al. "Am I OK?" using human centered design to empower rheumatoid arthritis patients through patient reported outcomes. *Patient Educ Couns*. 2019;102(3):503-10.
110. Gandrup J, Ali SM, McBeth J, van der Veer SN, Dixon WG. Remote symptom monitoring integrated into electronic health records: A systematic review. *J Am Med Inform Assoc*. 2020;27(11):1752-63.
111. Schougaard LMV, Mejdahl CT, Christensen J, Lomborg K, Maindal HT, de Thurah A, et al. Patient-initiated versus fixed-interval patient-reported outcome-based follow-up in outpatients with epilepsy: a pragmatic randomized controlled trial. *J Patient Rep Outcomes*. 2019;3(1):61.
112. Lee YC, Lu F, Colls J, Luo D, Wang P, Dunlop DD, et al. Outcomes of a Mobile App to Monitor Patient-Reported Outcomes in Rheumatoid Arthritis: A Randomized Controlled Trial. *Arthritis Rheumatol*. 2021;73(8):1421-9.

113. Zhang L, He X, Shen Y, Yu H, Pan J, Zhu W, et al. Effectiveness of Smartphone App-Based Interactive Management on Glycemic Control in Chinese Patients With Poorly Controlled Diabetes: Randomized Controlled Trial. *J Med Internet Res*. 2019;21(12):e15401.
114. van Riel P, Zuidema RM, Vogel C, Rongen-van Dartel SAA. Patient Self-Management and Tracking: A European Experience. *Rheum Dis Clin North Am*. 2019;45(2):187-95.
115. Agarwal P, Mukerji G, Desveaux L, Ivers NM, Bhattacharyya O, Hensel JM, et al. Mobile App for Improved Self-Management of Type 2 Diabetes: Multicenter Pragmatic Randomized Controlled Trial. *JMIR Mhealth Uhealth*. 2019;7(1):e10321.
116. Aikens JE, Rosland AM, Piette JD. Improvements in illness self-management and psychological distress associated with telemonitoring support for adults with diabetes. *Prim Care Diabetes*. 2015;9(2):127-34.
117. De Ruvo E, Gargaro A, Sciarra L, De Luca L, Zuccaro LM, Stirpe F, et al. Early detection of adverse events with daily remote monitoring versus quarterly standard follow-up program in patients with CRT-D. *Pacing Clin Electrophysiol*. 2011;34(2):208-16.
118. Ralston JD, Cook AJ, Anderson ML, Catz SL, Fishman PA, Carlson J, et al. Home blood pressure monitoring, secure electronic messaging and medication intensification for improving hypertension control: a mediation analysis. *Appl Clin Inform*. 2014;5(1):232-48.
119. George LA, Cross RK. Remote Monitoring and Telemedicine in IBD: Are We There Yet? *Curr Gastroenterol Rep*. 2020;22(3):12.
120. Vanderboom CE, Vincent A, Luedtke CA, Rhudy LM, Bowles KH. Feasibility of interactive technology for symptom monitoring in patients with fibromyalgia. *Pain Manag Nurs*. 2014;15(3):557-64.
121. Bradway M, Arsand E, Grottlund A. Mobile Health: empowering patients and driving change. *Trends Endocrinol Metab*. 2015;26(3):114-7.
122. Ducou le Pointe H. Teleradiology. *Biomed Pharmacother*. 1998;52(2):64-8.
123. Rosenkrantz AB, Hanna TN, Steenburg SD, Tarrant MJ, Pyatt RS, Friedberg EB. The Current State of Teleradiology Across the United States: A National Survey of Radiologists' Habits, Attitudes, and Perceptions on Teleradiology Practice. *J Am Coll Radiol*. 2019;16(12):1677-87.

124. Hanna TN, Steenburg SD, Rosenkrantz AB, Pyatt RS, Jr., Duszak R, Jr., Friedberg EB. Emerging Challenges and Opportunities in the Evolution of Teleradiology. *AJR Am J Roentgenol*. 2020;215(6):1411-6.
125. McKoy K, Halpern S, Mutyambizi K. International Teledermatology Review. *Curr Dermatol Rep*. 2021;10(3):55-66.
126. Koch R, Rosel I, Polanc A, Thies C, Sundmacher L, Eigentler T, et al. TELEDerm: Implementing store-and-forward teledermatology consultations in general practice: Results of a cluster randomized trial. *J Telemed Telecare*. 2022;1357633X221089133.
127. Maddukuri S, Patel J, Lipoff JB. Teledermatology Addressing Disparities in Health Care Access: a Review. *Curr Dermatol Rep*. 2021:1-8.
128. Amkreutz J, Lenssen R, Marx G, Deisz R, Eisert A. Medication safety in a German telemedicine centre: Implementation of a telepharmaceutical expert consultation in addition to existing tele-intensive care unit services. *J Telemed Telecare*. 2020;26(1-2):105-12.
129. Ming DY, Li T, Ross MH, Frush J, He J, Goldstein BA, et al. Feasibility of Post-hospitalization Telemedicine Video Visits for Children With Medical Complexity. *J Pediatr Health Care*. 2022;36(2):e22-e35.
130. Donaghy E, Atherton H, Hammersley V, McNeilly H, Bikker A, Robbins L, et al. Acceptability, benefits, and challenges of video consulting: a qualitative study in primary care. *Br J Gen Pract*. 2019;69(686):e586-e94.
131. Powell RE, Henstenburg JM, Cooper G, Hollander JE, Rising KL. Patient Perceptions of Telehealth Primary Care Video Visits. *Ann Fam Med*. 2017;15(3):225-9.
132. James HM, Papoutsi C, Wherton J, Greenhalgh T, Shaw SE. Spread, Scale-up, and Sustainability of Video Consulting in Health Care: Systematic Review and Synthesis Guided by the NASSS Framework. *J Med Internet Res*. 2021;23(1):e23775.
133. Almathami HKY, Win KT, Vlahu-Gjorgievska E. Barriers and Facilitators That Influence Telemedicine-Based, Real-Time, Online Consultation at Patients' Homes: Systematic Literature Review. *J Med Internet Res*. 2020;22(2):e16407.
134. Mann DM, Chen J, Chunara R, Testa PA, Nov O. COVID-19 transforms health care through telemedicine: Evidence from the field. *J Am Med Inform Assoc*. 2020;27(7):1132-5.



135. Patel M, Miller R, Haddad H, An L, Devito J, Neff A, et al. Assessing patient usability of video visits. *Mhealth*. 2021;7:22.
136. Viers BR, Pruthi S, Rivera ME, O'Neil DA, Gardner MR, Jenkins SM, et al. Are Patients Willing to Engage in Telemedicine for Their Care: A Survey of Preuse Perceptions and Acceptance of Remote Video Visits in a Urological Patient Population. *Urology*. 2015;85(6):1233-9.
137. Chang JE, Lai AY, Gupta A, Nguyen AM, Berry CA, Shelley DR. Rapid Transition to Telehealth and the Digital Divide: Implications for Primary Care Access and Equity in a Post-COVID Era. *Milbank Q*. 2021;99(2):340-68.
138. Kronenfeld JP, Penedo FJ. Novel coronavirus (COVID-19): telemedicine and remote care delivery in a time of medical crisis, implementation, and challenges. *Translational behavioral medicine*. 2021;11(2):659-63.
139. Silver SL, Lewis MN, Ledford CJW. A Stepwise Transition to Telemedicine in Response to COVID-19. *J Am Board Fam Med*. 2021;34(Suppl):S152-s61.
140. Agnisarman SO, Chalil Madathil K, Smith K, Ashok A, Welch B, McElligott JT. Lessons learned from the usability assessment of home-based telemedicine systems. *Appl Ergon*. 2017;58:424-34.
141. Taylor-Gjevre R, Nair B, Bath B, Okpalauwaekwe U, Sharma M, Penz E, et al. Addressing rural and remote access disparities for patients with inflammatory arthritis through video-conferencing and innovative inter-professional care models. *Musculoskeletal Care*. 2018;16(1):90-5.
142. de Thurah A, Stengaard-Pedersen K, Axelsen M, Fredberg U, Schougaard LMV, Hjollund NHI, et al. Tele-Health Followup Strategy for Tight Control of Disease Activity in Rheumatoid Arthritis: Results of a Randomized Controlled Trial. *Arthritis Care Res (Hoboken)*. 2018;70(3):353-60.
143. Rho MJ, Choi IY, Lee J. Predictive factors of telemedicine service acceptance and behavioral intention of physicians. *Int J Med Inform*. 2014;83(8):559-71.
144. Muehlensiepen F, Knitza J, Marquardt W, Engler J, Hueber A, Welcker M. Acceptance of Telerheumatology by Rheumatologists and General Practitioners in Germany: Nationwide Cross-sectional Survey Study. *J Med Internet Res*. 2021;23(3):e23742.
145. Shiferaw KB, Mengiste SA, Gullslett MK, Zeleke AA, Tilahun B, Tebeje T, et al. Healthcare providers' acceptance of telemedicine and preference of modalities

during COVID-19 pandemics in a low-resource setting: An extended UTAUT model. *PLoS One*. 2021;16(4):e0250220.

146. Tobór-Świątek E, Sykut-Cegielska J, Bik-Multanowski M, Walczak M, Rokicki D, Kałużny Ł, et al. COVID-19 Pandemic and Patients with Rare Inherited Metabolic Disorders and Rare Autoinflammatory Diseases-Organizational Challenges from the Point of View of Healthcare Providers. *J Clin Med*. 2021;10(21).

147. Cohen E, Cohen MI. COVID-19 will forever change the landscape of telemedicine. *Curr Opin Cardiol*. 2021;36(1):110-5.

148. Hollander JE, Carr BG. Virtually Perfect? Telemedicine for Covid-19. *N Engl J Med*. 2020;382(18):1679-81.

149. Sun R, Blayney DW, Hernandez-Boussard T. Health management via telemedicine: Learning from the COVID-19 experience. *J Am Med Inform Assoc*. 2021.

150. Jalalabadi F, Shultz KP, Sussman NL, Fisher WE, Reece EM. Initiating Telehealth in a Complex Organization. *Semin Plast Surg*. 2018;32(4):159-61.

151. Bokolo AJ. Exploring the adoption of telemedicine and virtual software for care of outpatients during and after COVID-19 pandemic. *Ir J Med Sci*. 2021;190(1):1-10.

152. Sahin E, Kefeli U, Cabuk D, Ozden E, Cakmak Y, Kaypak MA, et al. Perceptions and acceptance of telemedicine among medical oncologists before and during the COVID-19 pandemic in Turkey. *Support Care Cancer*. 2021.

153. Bos WH, van Tubergen A, Vonkeman HE. Telemedicine for patients with rheumatic and musculoskeletal diseases during the COVID-19 pandemic; a positive experience in the Netherlands. *Rheumatol Int*. 2021;41(3):565-73.

154. Drake C, Lian T, Cameron B, Medynskaya K, Bosworth HB, Shah K. Understanding Telemedicine's "New Normal": Variations in Telemedicine Use by Specialty Line and Patient Demographics. *Telemed J E Health*. 2021.

155. Chu C, Cram P, Pang A, Stamenova V, Tadrous M, Bhatia RS. Rural Telemedicine Use Before and During the COVID-19 Pandemic: Repeated Cross-sectional Study. *J Med Internet Res*. 2021;23(4):e26960.

156. Mariani AW, Pego-Fernandes PM. The impact of COVID-19 on the development and consolidation of telemedicine. *Sao Paulo Med J*. 2021;139(3):199-200.

157. Nittari G, Khuman R, Baldoni S, Pallotta G, Battineni G, Sirignano A, et al. Telemedicine Practice: Review of the Current Ethical and Legal Challenges. *Telemed J E Health*. 2020;26(12):1427-37.
158. Khabreev RU, Bakirova EA, Berseneva EA, Savostina EA. [COVID-19 as a catalyst of development of telemedicine services to rural population]. *Probl Sotsialnoi Gig Zdravookhranennii i Istor Med*. 2021;29(5):1029-33.
159. Shih T-H, Fan X. Comparing Response Rates from Web and Mail Surveys: A Meta-Analysis. *Field Methods*. 2008;20(3):249-71.
160. Cook JV, Dickinson HO, Eccles MP. Response rates in postal surveys of healthcare professionals between 1996 and 2005: an observational study. *BMC Health Serv Res*. 2009;9:160.
161. Wangler J, Jansky M. Welchen Nutzen bringen Gesundheits-Apps für die Primärversorgung? Ergebnisse einer Befragung von Allgemeinmedizinerinnen. *Prävention und Gesundheitsförderung*. 2021;16(2):150-6.

## 7 Erklärung zum Eigenanteil

Die vorliegende Dissertation wurde unter der Betreuung von Frau Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner und Frau Dr. med. Tatjana Welzel in der Abteilung Pädiatrische Rheumatologie an der Universitätskinderklinik der Universität Tübingen durchgeführt.

Die Konzeption der Arbeit erfolgte durch Lea Oefelein in Zusammenarbeit mit Dr. med. Tatjana Welzel und Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner. Die Datenerhebung erfolgte durch Lea Oefelein in Supervision durch Dr. med. Tatjana Welzel. Die statistische Auswertung erfolgte eigenständig durch Lea Oefelein mit Unterstützung und Supervision durch Jens Klotsche. Es erfolgte außerdem eine statistische Beratung durch Frau Anette Stauch vom Center for pediatric clinical studies (CPCS) Tübingen. Die Tabellen und Abbildungen wurden eigenständig von Lea Oefelein und die Abbildungen zum TAM mit der Unterstützung von Jens Klotsche erstellt. Die Verfassung der Dissertation erfolgte eigenständig durch Lea Oefelein mit Beratung durch Dr. med. Tatjana Welzel und Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner.

Auszüge der arcTmobile-Pilotstudie wurden als Poster auf dem Deutschen Kongress für Kinder- und Jugendmedizin (DGKJ) 2020<sup>1</sup> präsentiert. Auszüge der Niedergelassenenstudie wurden als Poster und Kurzvortrag auf dem Deutschen Kongress für Kinder- und Jugendmedizin (DGKJ) 2021<sup>2</sup> und auf der American College of Rheumatology (ACR) Convergence 2021<sup>3</sup> präsentiert.

Ich versichere, dass ich keine weiteren als die von mir angegebenen Quellen verwendet habe.

Tübingen, den 01.06.2023



---

<sup>1</sup> <https://doi.org/10.1007/s00112-020-01006-7>

<sup>2</sup> <https://doi.org/10.1007/s00112-021-01281-y>

<sup>3</sup> <https://acrabstracts.org/abstract/telemedicine-enriched-care-model-to-optimize-care-for-patients-with-autoinflammatory-diseases/>

## 8 Anhänge

- Anhang 1 *myAIDAI* Papier-Beschwerdetagebuch
- Anhang 2 USE-Fragebogen *myAIDAI* Papier-Beschwerdetagebuch
- Anhang 3 USE-Fragebogen App *arcTmobile*
- Anhang 4 SUS-Fragebogen App *arcTmobile*
- Anhang 5 IMeRa-Datenschutzkonzept
- Anhang 6 Anschreiben Niedergelassenenstudie
- Anhang 7 Fragebogen Niedergelassenenstudie

**Anhang 1: myAIDAI Papier-Beschwerdetagebuch**

Name:		Alter:				Monat:				Jahr:			
Symptome im Zusammenhang mit auto-inflammatorischen Erkrankungen heute													
Tage	Fieber ≥38°C (a)	Allgemein- Symptome (b)	Bauch- schmerzen (c)	Übelkeit /Erbrechen (d)	Durchfall (e)	Kopf- schmerzen (f)	Brustkorb- bezogene Schmerzen (g)	Schmerzhafte Drüsen/Lymphknoten (h)	Schmerzende Gliedmaßen/Gelenke (i)	Geschwollene oder gerötete Gelenke (j)	Probleme mit den Augen (k)	Haut- ausschlag (l)	Schmerz- medikation eingenommen
bewertet mit:	0 oder 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 bis 3	0 oder 1
1													
2													
3													
4													
5													
6													
7													
8													
9													
10													
...													
...													
...													
29													
30													

<p>Anzahl versäumter Schul-/Arbeitstage : _____ Tage</p> <p>Wie sehr war im letzten Monat Ihr soziales Leben von Ihrer Erkrankung beeinträchtigt : 0 1 2 3</p> <p>Wie hoch war Ihr Müdigkeitsscore :</p> <p>Gar nicht 0 _____ 100 sehr</p>	<p><b>Bewertungssystem:</b></p> <p>- Fieber ≥38°C und „Schmerzmedikation eingenommen“: 0=nein 1=ja</p> <p>- Andere Variablen: 0=keine Symptome, 1= wenig, 2= mild, 3=schwer</p> <p><b>Verwenden Sie jeden Monat einen neuen Kalender.</b> Notieren Sie nur Symptome die mit dem Fiebersyndrom zu tun haben. Sollten Sie keinerlei Symptome haben, bringen Sie den Kalender leer zurück.</p>
--	---

**Machbarkeitsstudie zur App-basierten Erfassung der Erkrankungsaktivität bei Patienten mit autoinflammatorischen Erkrankungen (arcTmobile)**      Study ID: \_\_\_\_\_

**Liebe Studienteilnehmende,**

**Datum** \_\_ \_\_ \_\_\_\_

dies ist der **erste** (heute auszufüllende) Fragebogen zur Machbarkeitsstudie der App-basierten Erfassung deiner/Ihrer Erkrankungsaktivität bzw. der Ihres Kindes.

Bitte füll/füllen Sie alle Fragen des Fragebogens aus. Hierzu machen Sie ein Kreuz an der Stelle 1 – 7. Wenn Du/Sie eine Antwort nicht beantworten kannst/können, kreuze/kreuzen Sie bitte „NA“ an.

Bitte gebe/geben Sie uns nach dem Ausfüllen den Fragebogen zurück. Wir werden diesen dann verschlüsseln, so dass später keine Person, die nicht an der Studie arbeitet auf Dich/Sie rückschlussfolgern kann.

Vielen Dank für das Mitmachen !

**Das Studien-Team arcTmobile**

NÜTZLICHKEIT		1	2	3	4	5	6	7		NA
1. Der Papier myAIDAI hilft mir Symptome genau zu erfassen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
2. Der Papier myAIDAI hilft mir die Symptome zu erfassen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
3. Der Papier myAIDAI ist nützlich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
4. Der Papier myAIDAI ermöglicht mir eine Übersicht über meine Teilhabe am sozialen Leben.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
5. Der Papier myAIDAI ermöglicht mir das Dokumentieren der Symptome.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
6. Der Papier myAIDAI ermöglicht mir eine schnelle Dokumentation der Symptome.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
7. Der Papier myAIDAI bildet das ab, was mir wichtig ist.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
8. Der Papier myAIDAI erfüllt meine Erwartung.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>

**Machbarkeitsstudie zur App-basierten Erfassung der Erkrankungsaktivität bei Patienten mit  
autoinflammatorischen Erkrankungen (arcTmobile) Study ID: \_\_\_\_\_**

**BENUTZERFREUNDLICHKEIT**

		1	2	3	4	5	6	7		NA
9. Der Papier myAIDAI ist leicht auszufüllen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
10. Der Papier myAIDAI ist alltagstauglich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
11. Der Papier myAIDAI ist benutzerfreundlich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
12. Frage nur in drittem Fragebogen enthalten.										
13. Ich kann flexibel im Papier myAIDAI die Symptome erfassen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
14. Der Papier myAIDAI kann ohne großen Aufwand genutzt werden.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
15. Der Papier myAIDAI ist ohne Erklärung verständlich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
16. Ich bemerke keine Unstimmigkeiten bei der Nutzung.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
17. Ich nutze den Papier myAIDAI täglich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
18. Ich kann Fehlangaben schnell rückgängig machen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
19. Ich kann den Papier myAIDAI immer erfolgreich anwenden.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>

**ERLERNBARKEIT**

		1	2	3	4	5	6	7		NA
20. Ich habe schnell gelernt den Papier myAIDAI korrekt auszufüllen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
21. Ich kann mir leicht merken, wie ich den Papier myAIDAI ausfüllen muss.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>



**Machbarkeitsstudie zur App-basierten Erfassung der Erkrankungsaktivität bei Patienten mit  
autoinflammatorischen Erkrankungen (arcTmobile) Study ID: \_\_\_\_\_**

22. Die Bedienung ist leicht zu erlernen. nicht         sehr   
einverstanden
23. Ich konnte schnell den Papier myAIDAI nicht         sehr   
so anwenden wie gewünscht. einverstanden

**ZUFRIEDENHEIT**

- |  |                                | 1                        | 2                        | 3                        | 4                        | 5                        | 6                        | 7                        |                               | NA                       |
|--|--------------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|-------------------------------|--------------------------|
| 24. Ich bin mit dem Papier myAIDAI zufrieden.  | nicht <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
|  | einverstanden                  |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                               |                          |
| 25. Ich würde den Papier myAIDAI einem Freund/einer Freundin, der auch krank ist, empfehlen. | nicht <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
|  | einverstanden                  |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                               |                          |
| 26. Es macht Spaß den Papier myAIDAI zu benutzen.  | nicht <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
|  | einverstanden                  |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                               |                          |
| 27. Der Papier myAIDAI ist so aufgebaut, wie ich es möchte.                                  | nicht <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
|  | einverstanden                  |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                               |                          |
| 28. Der Papier myAIDAI ist wunderbar.  | nicht <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
|  | einverstanden                  |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                               |                          |
| 29. Ich habe das Gefühl, dass ich den Papier my AiDAI brauche.                               | nicht <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
|  | einverstanden                  |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                               |                          |
| 30. Der Papier myAIDAI ist angenehm in der Benutzung.  | nicht <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
|  | einverstanden                  |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                               |                          |

1 2 3 4 5 6 7 NA

Bitte notiere/notieren Sie die Sachen, die sie **am meisten beim Papier myAIDAI stören**/ die Du/Sie gerne **ändern**. Sollte es keine Sachen geben, die Sie/Dich stören mache/machen Sie bitte ein Kreuz bei „nichts“.

1.
  2.
  3.
- Nichts

Bitte notiere/ notieren Sie die Sachen die Du/Sie **gut bei dem Papier myAIDAI finden**. Solltest Du/Sollten Sie keine Sachen beim Papier AIDAI gut finden, mache /machen Sie bitte bei „Nichts“ ein Kreuz

1.
  2.
  3.
- Nichts

Vielen Dank für das Ausfüllen und die Abgabe an unser Studienteam!

**Machbarkeitsstudie zur App-basierten Erfassung der Erkrankungsaktivität bei Patienten mit autoinflammatorischen Erkrankungen (arcTmobile)** Study ID: \_\_\_\_\_

**Liebe Studienteilnehmende,**

**Datum** \_\_ \_\_ \_\_\_\_

dies ist der **zweite** (3 Monate nach Studienstart auszufüllende) Fragebogen zur Machbarkeitsstudie der App-basierten Erfassung deiner/Ihrer Erkrankungsaktivität bzw. der ihres Kindes.

Bitte füll/füllen Sie alle Fragen des Fragebogens aus. Hierzu machen Sie ein Kreuz an der Stelle 1 – 7. Wenn Du/Sie eine Antwort nicht beantworten kannst/können, kreuze/kreuzen Sie bitte „NA“ an.

Bitte gebe/geben Sie uns nach dem Ausfüllen den Fragebogen zurück. Wir werden diesen dann verschlüsseln, so dass später keine Person, die nicht an der Studie arbeitet auf Dich/Sie rückschlussfolgern kann.

Vielen Dank für das Mitmachen!

**Das Studien-Team arcTmobile**

NÜTZLICHKEIT		1	2	3	4	5	6	7		NA
1. Die arcTmobile App hilft mir die Symptome genauer zu erfassen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
2. Die arcTmobile App hilft mir besser die Symptome zu erfassen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
3. Die arcTmobile App ist nützlich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
4. Sie ermöglicht mir eine Übersicht über meine Teilhabe am sozialen Leben.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
5. Die arcTmobile App erleichtert mir das Dokumentieren der Symptome.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
6. Durch die arcTmobile App spare ich Zeit.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
7. Die arcTmobile App bildet das ab, was mir wichtig ist.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
8. Die arcTmobile App erfüllt meine Erwartung.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>

**Machbarkeitsstudie zur App-basierten Erfassung der Erkrankungsaktivität bei Patienten mit  
autoinflammatorischen Erkrankungen (arcTmobile)**

Study ID: \_\_\_\_\_

**BENUTZERFREUNDLICHKEIT**

		1	2	3	4	5	6	7		NA
9. Die arcTmobile App ist leicht zu bedienen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
10. Die arcTmobile App ist alltagstauglich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
11. Die arcTmobile App ist benutzerfreundlich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
12. Es braucht nur wenige Schritte, um die arcTmobile App erfolgreich nutzen zu können.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
13. Ich kann flexibel in der arcTmobile App die Symptome erfassen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
14. Die arcTmobile App kann ohne großen Aufwand genutzt werden.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
15. Die arcTmobile App kann ohne schriftliche Anleitung genutzt werden..	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
16. Ich bemerke keine Unstimmigkeiten bei der Nutzung.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
17. Ich nutze die arcTmobile App täglich.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
18. Ich kann Fehleingaben schnell rückgängig machen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>
19. Ich kann Die arcTmobile App immer erfolgreich anwenden.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>

**ERLERNBARKEIT**

		1	2	3	4	5	6	7		NA
20. Ich habe schnell gelernt die arcTmobile App zu bedienen.	nicht einverstanden	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	sehr einverstanden	<input type="checkbox"/>

**Machbarkeitsstudie zur App-basierten Erfassung der Erkrankungsaktivität bei Patienten mit  
autoinflammatorischen Erkrankungen (arcTmobile)**

Study ID: \_\_\_\_\_

- |   |                        |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                          |                       |                          |
|---|------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|-----------------------|--------------------------|
| 21. Ich kann mir leicht merken, wie ich die arcTmobile App bedienen kann. | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 22. Die Bedienung ist leicht zu erlernen.                                 | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 23. Ich konnte schnell geschickt mit der arcTmobile App umgehen.          | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |

**ZUFRIEDENHEIT**

- |  |                        | 1                        | 2                        | 3                        | 4                        | 5                        | 6                        | 7                        |                       | NA                       |
|--|------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|--------------------------|-----------------------|--------------------------|
| 24. Ich bin mit der arcTmobile App zufrieden.  | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 25. Ich würde die arcTmobile App einem Freund/einer Freundin, der auch krank ist, empfehlen. | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 26. Es macht Spaß die arcTmobile App zu benutzen.  | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 27. Die arcTmobile App funktioniert so, wie ich es möchte.                                   | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 28. Die arcTmobile App ist wunderbar.  | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 29. Ich habe das Gefühl, dass ich die arcTmobile App brauche.                                | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |
| 30. Die arcTmobile App ist angenehm in der Benutzung.  | nicht<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | sehr<br>einverstanden | <input type="checkbox"/> |

1 2 3 4 5 6 7 NA

Bitte notiere/notieren Sie Sachen, die sie **am meisten gestört** haben/die Ihnen **fehlen**.  
Sollte es keine Sachen geben, die Sie/Dich stören machen Sie/mache bitte ein Kreuz bei  
„Nichts“.

1.
  2.
  3.
- Nichts

Bitte notiere/notieren Sie die Sachen, **die Sie gut bei der arcTmobile App finden**. Wenn  
Sie/Du keine Sachen positiv finden/findest machen Sie/mache bitte ein Kreuz bei „Nichts“.

1.
  2.
  3.
- Nichts

Vielen Dank für das Ausfüllen und die Abgabe an unser Studienteam!

**Machbarkeitsstudie zur App-basierten Erfassung der Erkrankungsaktivität bei Patienten mit autoinflammatorischen Erkrankungen (arcTmobile)** ID \_\_\_\_\_

**Fragebogen zur System-Gebrauchstauglichkeit**

**Liebe Studienteilnehmende,**

dies ist der **dritte** Fragebogen zur Machbarkeitsstudie der App-basierten Erfassung deiner/ihrer Erkrankungsaktivität bzw. der ihres Kindes.

Bitte füll/füllen Sie alle Fragen des Fragebogens aus. Hierzu machen sie ein Kreuz an der Stelle 1 – 5.

Bitte gebe/geben Sie uns nach dem Ausfüllen den Fragebogen zurück. Vielen Dank für das Mitmachen!

**Das Studien-Team arcTmobile**

**Ausfüll-Datum** \_\_\_\_\_

1. Ich denke, dass ich die arcTmobile App in Zukunft gerne häufig benutzen würde.

<b>Stimme überhaupt nicht zu 1</b>	<b>2</b>	<b>3</b>	<b>4</b>	<b>Stimme voll zu 5</b>
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

2. Ich fand die arcTmobile App unnötig komplex.

<b>Stimme überhaupt nicht zu 1</b>	<b>2</b>	<b>3</b>	<b>4</b>	<b>Stimme voll zu 5</b>
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

3. Ich fand die arcTmobile App einfach zu benutzen ist.

<b>Stimme überhaupt nicht zu 1</b>	<b>2</b>	<b>3</b>	<b>4</b>	<b>Stimme voll zu 5</b>
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

4. Ich glaube, mit Hilfe einer technisch versierten Person hätte ich die arcTmobile App schneller und besser benutzen können.

<b>Stimme überhaupt nicht zu 1</b>	<b>2</b>	<b>3</b>	<b>4</b>	<b>Stimme voll zu 5</b>
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

**Fragebogen zur System-Gebrauchstauglichkeit**

5. Ich fand, die verschiedenen Funktionen in dieser die arcTmobile App gut integriert.

Stimme überhaupt nicht zu 1	2	3	4	Stimme voll zu 5
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

6. Ich denke, die arcTmobile App enthielt viele Unstimmigkeiten.

Stimme überhaupt nicht zu 1	2	3	4	Stimme voll zu 5
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

7. Ich kann mir vorstellen, dass die meisten Menschen den Umgang mit dieser die arcTmobile App sehr schnell lernen.

Stimme überhaupt nicht zu 1	2	3	4	Stimme voll zu 5
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

8. Ich fand, dass die arcTmobile App sehr umständlich zu nutzen ist.

Stimme überhaupt nicht zu 1	2	3	4	Stimme voll zu 5
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

9. Ich fühlte mich bei der Benutzung dieser die arcTmobile App sehr sicher.

Stimme überhaupt nicht zu 1	2	3	4	Stimme voll zu 5
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

10. Ich musste eine Menge lernen, bevor ich anfangen konnte die arcTmobile App zu verwenden.

Stimme überhaupt nicht zu 1	2	3	4	Stimme voll zu 5
<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>





# Datenschutzkonzept

## IMeRa

### Integrated Mobile Health Research Platform

Stand 20. September 2018

Lautenbacher, Bizu, Ruff, Thiede, Schurer

#### Inhaltsverzeichnis

1	Anlaß für die Aktualisierung des Datenschutzkonzepts .....	2
2	Vorbemerkung.....	2
3	Gesetzliche Bestimmungen .....	5
4	Informationelle Selbstbestimmung des Patienten .....	5
4.1	Verschleierung der Patienten-Identität .....	5
4.2	Einwilligung des Patienten .....	5
4.3	Zustimmung des Patienten bei jedem Datenversand .....	6
4.4	Zustimmung des Patienten bei einer Datenweitergabe.....	6
4.5	Löschen der Patientendaten .....	6
5	Gefahren und Abhilfen.....	7
5.1	Ebene der mobilen Endgeräte.....	7
5.1.1	Gefahren .....	7
5.1.2	Abhilfe.....	8
5.2	Ebene der Internet-Kommunikation .....	8
5.2.1	Gefahren .....	8
5.2.2	Abhilfe.....	9
5.3	Ebene der Datenhaltung.....	9
5.3.1	Gefahren .....	9
5.3.2	Abhilfe.....	9

## 1 Anlaß für die Aktualisierung des Datenschutzkonzepts

Die Aktualisierung der letzten Konzeptversion vom 05.07.2017 ist aus folgenden Gründen erforderlich geworden:

- a) Die in der alten Konzeptversion beschriebene, in der DMZ des Universitätsklinikums lokalisierte intermediäre Datenbank zur Zwischenspeicherung mobiler Daten mit nachfolgender Weitergabe an das Mobile Data Repository for Research ist inzwischen obsolet geworden. Eine durch einen externen Entwickler programmierte App erforderte damals einen direkten Datenbankzugriff. Diese App wird in Folge des Auslaufens der Studie zum Jahresende nicht mehr in Betrieb sein. Deshalb konnte jetzt der im Förderantrag beschriebene, ursprünglich geplante Kommunikationsweg über SSL-verschlüsselte Webservices durchwegs umgesetzt werden.
- b) Das Problem proprietärer Software zur Ansteuerung von Aktivitätssensoren mit optionalem Datenupload in die Datenbank des Herstellers wurde von uns anfangs mit einer nicht dauerhaft befriedigenden Notlösung bewältigt. Durch eine Kooperationsvereinbarung mit einem deutschen Sensor-Anbieter ist es uns gelungen, eine vollumfängliche Offenlegung der Schnittstelle zum Sensor zu bewirken, so dass unsere Eigenentwicklung unter vollständiger Umgehung der Hersteller-Software alle Sensor-Funktionen nutzen kann.
- c) Die am 25. Mai 2018 in Kraft getretene EU-Datenschutz-Grundverordnung erforderte eine Durchsicht der alten Konzeptversion. Ergebnis: Hinsichtlich der EU-DSGVO waren keine Anpassungen notwendig.

## 2 Vorbemerkung

Das Projekt Integrated Mobile Health Research Platform (IMeRa) ist ein vom Ministerium für Wissenschaft, Forschung und Kunst, Baden-Württemberg im Rahmen des Förderprogramms eScience gefördertes Vorhaben zur Unterstützung medizinischer Forschung mit mobilen Geräten. Projektziel ist die Bereitstellung einer digitalen Forschungsplattform für forschungs- und patientenbezogene Daten, die z.B. über Smartphones erhoben und dann weiterverarbeitet werden. Die Plattform ist damit eine Infrastrukturmaßnahme, um das Handling von Forschungsdaten zu erleichtern und somit als eine Durchführungsbasis für eine disziplinen- und lokalisationsübergreifend verfügbare IT-Lösung für kollaborative Forschungsvorhaben (meist in Form klinischer Studien auch in Zusammenarbeit mit externen Kliniken) zu dienen.

Wichtige Anwendungsfelder sind z.B. das forschungsbezogene Patientenmonitoring (Remote-Messungen von Vitalparametern und Datenübermittlung an das Klinikum), Studienrekrutierungen und Studiendokumentationen, aber auch Forschungsvorhaben zur Verbesserung der Nachsorge von Patienten mit neurovaskulären, endokrinologischen und onkologischen Erkrankungen durch effizientere Outcome-Messungen (Patientenbefragungen über Mobile Devices). Die geplante IT-Plattform für eine mobile Forschungs-IT ist die Voraussetzung, dass solche Fragestellungen mit angemessenem Aufwand und Zeitbedarf umsetzbar sind.

Die Plattform unterstützt in hohem Maße die kollaborative Forschung, da eine Datenquelle für die multiple Nutzung einmal erhobener Informationen ohne Ortsbindung (und damit auch für externe, kooperierende Forscher/Forschergruppen) durch den Einsatz mobiler Endgeräte

ermöglicht wird. Die Plattform lässt sich zudem interoperabel in weitere, zukünftige nationale und internationale Netzwerke einbinden.

Die Vielgestaltigkeit derzeit entstehender bzw. geplanter mobiler Anwendungsbereiche erfordert einen maximal anpassbaren und damit modularen Aufbau der beantragten Plattform, der durch entsprechend ausgestaltete eigene Softwareentwicklung erzielt wird.

Durch die Entwicklung der geplanten IT-Infrastruktur sowie der IT-Anwendungen ist es nicht nur Forschern und Mediziner, sondern z.B. auch Patienten einer klinischen Studie möglich, effizienter mittels mobiler Endgeräte mit forschungsbezogenen Datenbanken zu kommunizieren. Die damit verbesserte Informationsverarbeitung unterstützt zudem durch einen höheren Datenumfang und Datendichte sowie eine verbesserte Datenqualität die Entwicklung entsprechender Studien. Als Pilotprojekt wurde eine erste mobile Anwendung eingebunden, die als Machbarkeits-Studie die Translation der Projektergebnisse in die praxisnahe Anwendung zeigen soll. Parallel zu den Entwicklungsarbeiten werden Prozess- und Standardisierungsmethoden entwickelt und als Leitlinien ausgearbeitet. Damit soll gewährleistet werden, dass die erzielten Lösungsansätze übertragbar und erweiterbar und somit für Folgeprojekte anwendbar sind.

Datenschutzrelevant sind in diesem Zusammenhang:

1. Forschungsdaten mit medizinisch relevanten, patientenbezogenen Inhalten an sich und
2. technisch-administrative Daten (z.B. Benutzerdaten für die Benutzerverwaltungen mit Zugriffsrechten, aber auch Systemparameter und zentral verfügbare Geräteeinstellungen).

Die nachfolgende Abbildung 1 illustriert die Architektur der Lösung.

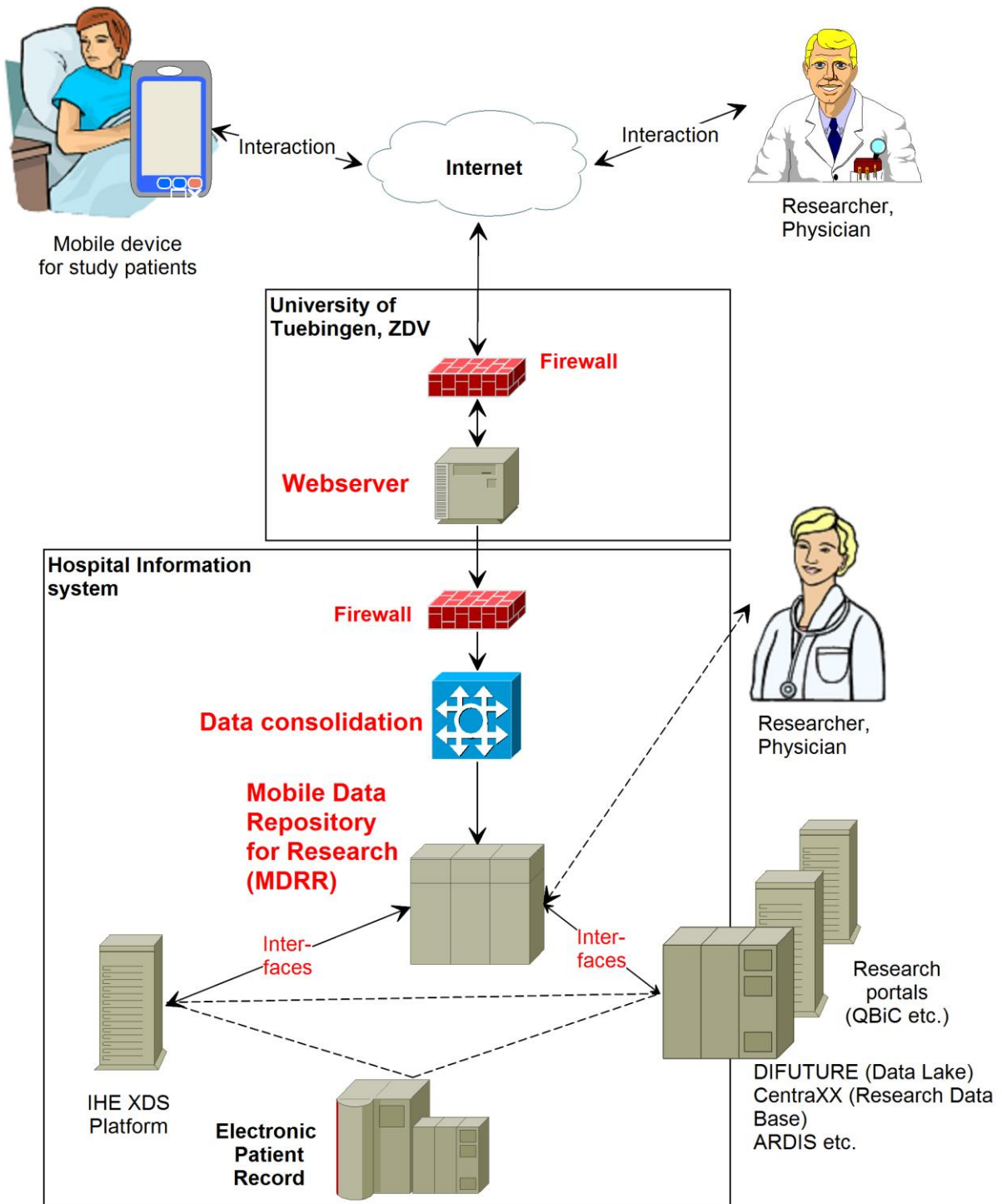


Abbildung 1: Datenfluss in der IMeRa-Architektur

### 3 Gesetzliche Bestimmungen

Alle relevanten gesetzlichen Bestimmungen sind im Datenschutzhandbuch des Universitätsklinikums zusammengefasst:

<http://www.med.uni-tuebingen.de/intern/datenschutz/index1c40.html>

Wichtig sind in diesem Zusammenhang:

- Ärztliche Berufsordnung Baden-Württemberg (ÄBO Baden-Württemberg, 1.11.2016)
- Landesdatenschutzgesetz (LDSG Baden-Württemberg, 17.12.2015)
- Landeskrankenhausgesetz – Datenschutzabschnitt (LKHG Baden-Württemberg, 23.2.3017)
- Psychotherapeutengesetz (PsychThG, 23.12.2016)
- Bundesdatenschutzgesetz (BDSG, 28.4.2017)
- Datenschutz-Grundverordnung (DSGVO, 25. Mai 2018)

### 4 Informationelle Selbstbestimmung des Patienten

#### 4.1 Verschleierung der Patienten-Identität

Die Identität der Studienteilnehmer wird durch eine Pseudonymisierung der Daten verschleiert. Außenstehende können keinen Rückschluss auf den konkreten Teilnehmer ziehen, sehr wohl aber z.B. die Studienleitung, welche über eine Zuordnungsliste die persönlichen Angaben der Teilnehmer ermittelt. Die Zuordnungsliste wird durch den Studienarzt in Eigenregie verwaltet und ist nicht Teil der IMeRa-Struktur. IMeRa und speziell die MDRR (Mobile Data Repository for Research) arbeiten ausschließlich mit Patienten-Pseudonymen.

#### 4.2 Einwilligung des Patienten

Patienten müssen gegenüber dem Studienarzt eine Einwilligung bezüglich der Speicherung und Weitergabe ihrer personenbezogenen Daten äußern. Das Einverständnis umfasst bestimmte Studien, einen Zeitraum (begrenzt durch Start und Ende) und einen Verwendungszweck. Unter Verwendungszweck werden auch Angaben zur Weitergabe der Daten an nachgeordnete Datenbanken (in der Regel sind dies Forschungsdatenbanken) dokumentiert. Dies ermöglicht es Anwendungen, welche mit der MDRR arbeiten, statusabhängig Daten zu verarbeiten und ggf. weiterzuleiten.

Die Einwilligung der Patienten wird in der MDRR in einer separaten Datenbanktabelle „Patient\_Consent“ gespeichert. Die Tabelle enthält die Attribute

- a. Consent\_ID (fortlaufender Zähler, ein Patient kann beliebig viele Consents geben)
- b. PseudoPat\_ID (Pseudonym der SAP-Patienten-ID)

- c. Project\_Participation\_ID (ID der Studienteilnahme bzw. der Projektteilnahme, diese referenziert auf eine Tabelle der Studien/Projekte; ein Patient kann an mehreren Studien/Projekten teilnehmen usw.)
- d. Consent\_StartDate (Beginn der Wirksamkeit der Einwilligung)
- e. Consent\_EndDate (Ende der Wirksamkeit der Einwilligung, damit kann der Patient, allgemein der Consent Owner seine Einwilligung zeitlich begrenzen)
- f. Consent\_State (Zustimmung oder Ablehnung des Patienten, allgemein des Consent Owners)
- g. Consent\_Usage (Kürzel des Verwendungszwecks, z.B. „MDRR\_only“, „Transfer\_to\_CentraXX“, „Transfer\_to\_DIZ“ usw., für jeden Verwendungszweck gibt eine eigene Consent\_ID und eine Zeile in der Datenbanktabelle; damit wird ein differenzierte Einwilligung des Studienpatienten abbildbar)
- h. Consent\_Owner (Consent Owner ist der Patient oder die Fachabteilung)

### **4.3 Zustimmung des Patienten bei jedem Datenversand**

Mobile Apps, die im Rahmen des IMeRa eingesetzt werden, sind so ausgestaltet, dass Patienten vor jedem Versand der eingegebenen Daten dem Versand explizit zustimmen müssen, andernfalls werden die Daten gelöscht. Dies wird z.B. durch einen „Senden-Ja-Button“ oder „Abbrechen-Button“ im Benutzerdialog technisch umgesetzt.

### **4.4 Zustimmung des Patienten bei einer Datenweitergabe**

IMeRa geht davon aus, dass mobil erhobene Forschungsdaten nicht nur im MDRR verbleiben, sondern an nachgeordnete Forschungsdatenbanken (z.B. CentraXX der Fa. Kairos oder das zukünftige Tübinger Datenintegrationszentrum DIZ) zu Auswertungen und Datenverdichtungen übergeben werden. Zustimmungen der Studienpatienten zu einer Datenweitergabe werden in der MDRR vermerkt, siehe Abschnitt „Einverständnis des Patienten“ werden.

Soll eine Zusammenführung mit klinischen Verlaufsdaten erfolgen, so ist eine De-Pseudonymisierung in den nachgeschalteten Systemen (so wie in CentraXX oder ARDIS usw.) vorzunehmen.

### **4.5 Löschen der Patientendaten**

Auf Verlangen des Studienpatienten sind Löschungen von Patientendaten auf allen Datenspeichern des IMeRa vorzunehmen. Nicht geregelt ist damit aber die Verfahrensweise beim Löschen von Daten, die bereits über IMeRa an nachgeordnete Datenspeicher, wie z.B. DIFUTURE oder CentraXX, weitergereicht wurden. Die Betreiber dieser Systeme sind für die Löschungen selbst verantwortlich.

## 5 Gefahren und Abhilfen

Gefahrenstufe	Gefahr	Abhilfe
Mobiles Endgerät: Smartphone, Tablet, Aktivitätssensor, PC	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Fehler in der Programmierung der App</li> <li>• Aktivitätssensor: Quasi-Nötigung zum Datenupload auf die Herstellerdatenbank</li> <li>• „Hintertürchen“ in der Hersteller-App oder in verwendeten Bibliotheken</li> <li>• Schad-Software, die sich der Benutzer eingefangen hat (Key-Logger usw.)</li> <li>• Smartphone/Sensor wird entwendet</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Vorkonfigurierte Geräte einsetzen</li> <li>• Qualitätsgesicherte Softwareentwicklung (Code-Review vor Inbetriebnahme usw.)</li> <li>• Kommerzielle Hersteller-Apps vermeiden und durch Eigenentwicklungen umgehen</li> <li>• Benutzer vollständig aufklären</li> <li>• Pseudonymisierung der Patientenidentität</li> </ul>
Datenübertragung	<ul style="list-style-type: none"> <li>• „Feind hört mit“</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Bestmögliche Verschlüsselung</li> <li>• Pseudonymisierung</li> </ul>
Datenspeicherung/ Zugriffsschutz	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Hacker-Angriffe</li> <li>• Nicht autorisierte interne Zugriffe</li> </ul>	<ul style="list-style-type: none"> <li>• Technische Vorkehrungen der Zugriffsbeschränkung und Zugriffskontrolle auf die Serversysteme</li> <li>• Pseudonymisierung</li> <li>• Firewalls</li> </ul>

### 5.1 Ebene der mobilen Endgeräte

#### 5.1.1 Gefahren

Über 80% der Consumer-Smartphones und damit der Smartphones unserer Studienpatienten laufen mit dem Betriebssystem Android (meist Versionen 5-8). Diese Umgebung ist durch das Universitätsklinikum nicht kontrollierbar. Vor allem, wenn Android-Geräte „geroutet“ werden, um Root-Rechte am Linux-basierten Betriebssystem zu erlangen. Der Benutzer kann unwissentlich Schadsoftware (Key-Logger usw.) installieren, welche ohne größere Hürden Eingaben der Benutzer abfangen und dann an unbefugte Dritte ohne Wissen des Benutzers weiterleiten.

Fehler in der Programmierung der App könnten ein Einfallstor für Angriffe darstellen, kommerzielle Apps ein „Hintertürchen“ des Herstellers in sich bergen und so weiter.

Nicht zuletzt könnte das Smartphone oder Tablet verloren gehen und Unbefugte auf dem Mobile Device zwischengespeicherte Daten auslesen. Aus diesem Grunde werden auf den Smartphones in den von uns angefertigten Apps keine Daten zwischengespeichert (beim Schließen der App ist alles gelöscht, auch wenn wegen Problemen der Netzverbindung evtl. keine Daten geschickt werden konnten).

Beim Einsatz von Fremdsoftware (kommerzielle Apps, proprietäre Software für Aktivitätssensoren) hat das Universitätsklinikum hierüber nur über entsprechende vertragliche Ausgestaltungen Einfluss (Graubereich). Besonders problematisch sind Anbieter von Aktivitätssensoren (Garmin, FitBit, TomTom usw.), die den Anwender fast dazu nötigen, auch die Herstellersoftware auf dem Smartphone zu installieren, welche die Sensordaten dann oft ungefragt auf den Herstellerserver überträgt.

### **5.1.2 Abhilfe**

In Ausnahmefällen kommen vorkonfigurierte Smartphones im Eigentum des Klinikums zum Einsatz, so z.B. im Pilotprojekt der Kinder- und Jugendpsychiatrie oder in der RadioCare-App, die durch spezielle Software gegen Konfigurationsänderungen geschützt sind und den Browser-Zugriff ins Internet verhindern. In den meisten Use Cases ist dies aus Kostengründen nicht möglich und es muss auf Privatgeräte der Patienten zurückgegriffen werden.

Alle App-Entwicklungen im Rahmen des IMeRa-Projekts erfolgen nach den Qualitätsrichtlinien des Universitätsklinikums, die Bestandteil der aktuellen Entwicklungsrichtlinien sind. Vor Inbetriebnahme der Apps wird z.B. in einem Code-Review nach dem Vier-Augen-Prinzip nach möglichen Schwachstellen gesucht. Dies ist bei kommerziellen Hersteller-Apps meist nicht möglich.

Das Problem proprietärer Software zur Ansteuerung von Aktivitätssensoren mit optionalem Datenupload in die Datenbank des Herstellers wurde von uns anfangs mit einer Notlösung bewältigt, welche zwar den Datenschutzbestimmungen entsprach, aber nicht dauerhaft befriedigend war. Durch eine Kooperationsvereinbarung mit einem deutschen Sensor-Anbieter ist es uns gelungen, eine vollumfängliche Offenlegung der Schnittstelle zum Sensor zu bewirken, so dass unsere eigenentwickelte Sensor-Smartphone-Schnittstelle unter vollständiger Umgehung der Hersteller-Software alle Sensor-Funktionen nutzen kann. Der Patient kann dann zwar trotzdem die Hersteller-App installieren (auf diese Weise kann er sich z.B. Datenverläufe grafisch aufbereitet anzeigen lassen), er tut dies dann aber freiwillig in eigener Verantwortung.

Benutzer sind vollständig über die Gefahren aufzuklären; die Modalitäten der Aufklärung sind von der Ethik-Kommission abzusegen.

**Auf der Ebene der mobilen Endgeräte stellt die strikte Pseudonymisierung der Patientidentitäten sicherlich den wirkungsvollsten Schutzmechanismus dar.**

## **5.2 Ebene der Internet-Kommunikation**

### **5.2.1 Gefahren**

Unbefugte könnten die Datenkommunikation zwischen mobilem Gerät und dem Universitätsklinikum abhören und Daten missbräuchlich verwenden.



## 5.2.2 Abhilfe

Zwei verschiedene Wege der Kommunikation mit Datenbanken des IMeRa sind geschaffen worden:

1. Kommunikation der Smartphone/Tablet-App über SSL-verschlüsselten Webservices. Das ist aus Gründen der Datensicherheit der bevorzugte Weg, der bis auf wenige, begründete Ausnahmen (siehe nächster Punkt) zum Tragen kommt.
2. Prototyphafte Kommunikation der Smartphone/Tablet-App durch direkten, aber SSL-verschlüsselten Datenbank-Zugriff. Dieser Zugriff ist nur auf die sich in der DMZ (demilitarisierte Zone) befindliche Datenbank möglich, nicht auf das interne MDRR. Diese aus technischen Gründen erforderliche Zwischenlösung (extern programmierte Apps, die nur über direkte Datenbankzugriffe mit Servern kommunizieren konnten) wurde inzwischen durch die im Konzept näher beschriebenen Webservices abgelöst. Im IMeRa werden Apps unterschiedlichster Provenienz zum Einsatz gebracht.

**Als wirkungsvollste, weil durch das Klinikum am besten kontrollierbare Maßnahme ist die Pseudonymisierung der Patientenidentitäten zu sehen.**

## 5.3 Ebene der Datenhaltung

### 5.3.1 Gefahren

Auf der Ebene der Datenhaltung ist mit Hacker-Angriffen auf die Server und das klinikinterne Netz, aber auch mit nicht autorisierten internen Zugriffen grundsätzlich zu rechnen.

### 5.3.2 Abhilfe

Sämtliche Patientendaten werden ausschließlich auf Servern des Universitätsklinikums gespeichert, ausgenommen ist eine in der Prototyp-Version gegebene temporäre Datenhaltung auf einem über eine Firewall gesicherten Server des Zentrums für Datenverarbeitung der Universität Tübingen (ZDV). Diese temporäre Datenhaltung war aus technischen Gründen für eine Kommunikation mit externen Partnern im Use Case Kinder- und Jugendpsychiatrie erforderlich und ist inzwischen durch den ursprünglich geplanten Webservice abgelöst worden. Um das Risiko möglichst gering zu halten, wurden die Daten in zeitlichen Abständen von 15 Minuten durch ein Programm von der intermediären Datenbank in das MDRR transferiert und aus der intermediären Datenbank gelöscht. In der finalen Lösung wird für die Datenübermittlung ein hochgesicherter Web-Server der ZDV-Umgebung eingesetzt, über den die Kommunikation mit dem User über Web-Services läuft.

Alle Zugriffe auf die klinikeigenen Server werden in einer Log-Datei protokolliert. Die Log-Dateien werden regelmäßig durch den GB IT ausgewertet. Um Hacker-Angriffe vorzubeugen, kann der Webservice nur nach einer erfolgreichen Authentifizierung aufgerufen werden und die gesendeten Daten müssen ein bestimmtes Format aufweisen, ansonsten werden diese nicht weiterverarbeitet und nicht in die MDRR übertragen.

Alle Server sind durch kaskadierte Firewalls nach außen geschützt.

Zugriffsbeschränkungen und Zugriffskontrollen auf die Serversysteme nach aktuellen Standards kommen zum Einsatz. Die Forscher können nur auf die Daten der Patienten ihrer Studie zugreifen und müssen sich vor Zugriff entsprechend authentifizieren.

Patientenidentitäten werden im IMeRa nur in pseudonymisierter Form gespeichert. Über das Vorhalten von De-Pseudonymisierungstabellen im IMeRa sind noch gesonderte Vereinbarungen zu treffen.



Universitätsklinik für  
Kinder- und Jugendmedizin  
Abt. Kinderheilkunde I  
Ärztlicher Direktor  
Prof. Dr. med. Rupert Handgretinger

Adresse befragter Arzt



Kinderklinik  
Tübingen  
Geschäftsleitung  
Prof. Dr. med. R. Handgretinger  
Stephanie Rich, MBA

**Pädiatrische Rheumatologie  
autoinflammation reference center Tübingen (arcT)**

Leitung: Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner

**Bitte um Teilnahme an der Evaluation von telemedizinischen Sprechstunden und Gesundheits-Apps zur heimatnahen Betreuung Ihrer Patienten mit Autoinflammatorischen Erkrankungen (CAPS, FMF, HIDS, PFAPA, TRAPS)**

**Sehr geehrte Frau XX**

Sie und Ihr Praxisteam betreuen Patient\*innen mit Autoinflammatorischen Erkrankungen (AID). AIDs sind sehr seltene schwere chronisch-entzündliche Erkrankungen, daher unterstützen wir Sie als spezialisiertes Zentrum (Autoinflammations Reference Center Tübingen) bei der Betreuung Ihre AID-Patient\*innen.

Insbesondere jedoch, wenn Laborkontrollen oder eine akute klinische Einschätzung nötig sind, sind Sie und Ihr Praxisteam vor Ort gefragt. Denn nur mit Ihrer Hilfe kann evaluiert werden, ob die Krankheit gut kontrolliert ist, ein Krankheitsschub vorliegt oder eine Therapieänderung/Intensivierung nötig ist. Hierbei ist mitunter eine kurze Besprechung des weiteren Procederes zwischen Ihnen und uns sinnvoll. Wir evaluieren daher aktuell Möglichkeiten **telemedizinische Sprechstunden für Arztpraxen mit AID-Patient\*innen wie Ihre** einzurichten, um Sie in solchen Situationen bedarfsgerecht unterstützen zu können.

Ebenso ist es wichtig, dass die AID-Patienten ihre Symptome selbst dokumentieren, damit wir die Krankheitsaktivität im Verlauf besser verfolgen können. Dies erfolgt aktuell anhand von Papierkalendern, die jedoch oft bei Vorstellungen oder bei Telefonaten nicht vorliegen. Wir planen daher die Entwicklung eines elektronischen **Symptomkalenders als App (arcTmobile)**, mit direktem Datentransfer. Dadurch soll sowohl die Dateneingabe erleichtert als auch die Datenverfügbarkeit verbessert werden.

Bevor wir jedoch entsprechende Maßnahmen implementieren, würden wir gerne von Ihnen wissen, ob Sie denken, dass telemedizinische Sprechstunden und die Gesundheits-App zum Symptom-Monitoring (arcTmobile) Sie und Ihre Patient\*innen beim Management der AID unterstützen können.

**Dazu bitten wir Sie den angehängten Fragebogen (Dauer ca. 10 Minuten) auszufüllen und uns im beigelegten frankierten Briefumschlag zurückzuschicken.** Ihre Teilnahme werden wir als Einverständnis werten, die Fragebögen pseudonymisiert wissenschaftlich auswerten zu dürfen und ggf. die Ergebnisse auch anonymisiert publizieren zu können. **Wir bedanken uns bereits jetzt sehr herzlich für Ihre Unterstützung und stehen bei möglichen Fragen gerne zur Verfügung!**

Mit freundlichen Grüßen



Prof. Dr. Jasmin Kümmerle-Deschner  
(Leiterin autoinflammation reference center Tübingen)

## FRAGEBOGEN

### Abschnitt 1: Epidemiologische Fragen und Allgemeines

Bitte kreuzen Sie jeweils eine Antwort an

- 1 Welches Geschlecht haben Sie?
  - weiblich
  - männlich
  - divers
- 2 Mit welcher Facharztbezeichnung sind Sie in Ihrer Praxis tätig?
  - Pädiatrie
  - Innere Medizin
  - Allgemeinmedizin
  - andere: \_\_\_\_\_
- 3 Wie lange sind Sie schon als niedergelassene/r Facharzt\*in tätig?
  - weniger als 5 Jahre
  - 11-20 Jahre
  - 5-10 Jahre
  - mehr als 20 Jahre
- 4 Wo befindet sich Ihre Praxis? In einer Gemeinde/Stadt mit
  - weniger als 5.000 Einwohner
  - 20.001-100.000 Einwohnern
  - 5.000-20.000 Einwohnern
  - mehr als 100.000 Einwohnern
- 5 Wie viele Patienten behandelt Ihre Praxis im Quartal?
  - weniger als 500 Patienten
  - 1001-1500 Patienten
  - 501-1000 Patienten
  - mehr als 1500 Patienten
- 6 Wie alt sind Sie?
  - 25-30 Jahre
  - 46-60 Jahre
  - 31-45 Jahre
  - > 60 Jahre
- 7 Wie viele Patienten mit autoinflammatorischer Erkrankung haben Sie im letzten Jahr betreut?
  - 1
  - $\geq 10$
  - 2-4
  - weiß ich nicht
  - 5-9
- 8 Wie sicher fühlen Sie sich in der Betreuung von Patienten mit autoinflammatorischen Erkrankungen?
  - sehr unsicher
  - sicher
  - unsicher
  - sehr sicher
  - neutral
- 9 Wünschen Sie sich mehr Unterstützung durch Spezialisten bei der Betreuung von autoinflammatorischen Patienten?
  - ja
  - keine Angabe
  - nein
- 10 Sind Sie für telemedizinische Sprechstunden technisch (Webcam, Mikrofon etc.) ausreichend ausgerüstet?
  - ja
  - keine Angabe
  - nein
- 11 Sind Sie durch die Coronavirus-Pandemie telemedizinischen Technologien gegenüber aufgeschlossener geworden?
  - ja
  - keine Angabe
  - nein
- 12 Haben Sie bereits Patienten, die Gesundheits-Apps verwenden und die damit erhobenen Daten mit Ihnen besprechen?
  - ja
  - keine Angabe
  - nein
- 13 Wurden Sie schon von Patienten in Bezug auf Gesundheits-Apps angesprochen?
  - ja
  - keine Angabe
  - nein

## Abschnitt 2: Fragen zur Telemedizinischen Sprechstunde und der Symptom-App arcTmobile

Bitte kreuzen Sie jeweils eine Antwort an

Anmerkung: AID = Autoinflammatorische Erkrankung

Zu den AIDs zählen z.B.: CAPS = Cryopyrin-assoziiertes periodisches Syndrom, FMF= Familiäres Mittelmeerfieber, HIDS = Hyperimmunglobulin-D-Syndrom, PFAPA= Periodisches Fieber, Aphthen, Pharyngitis, (Lymph-)Adenopathie-Syndrom, TRAPS= Tumornekrosefaktor-Rezeptor-assoziiertes periodisches Syndrom

### FRAGEN ZUR TELEMEDIZIN

Nutzbarkeit	Stimme nicht zu						Stimme zu
1. Telemedizin würde mir eine schnellere Versorgung von AID-Patienten ermöglichen.	1	2	3	4	5	6	7
2. Telemedizin kann meine Patientenversorgung von AID-Patienten nicht verbessern.	1	2	3	4	5	6	7
3. Telemedizin würde meine Effizienz in der Patientenversorgung von AID-Patienten verbessern.	1	2	3	4	5	6	7
4. Telemedizin kann meine Effizienz in der AID-Patientenversorgung nicht verbessern.	1	2	3	4	5	6	7
5. Telemedizin würde die Versorgung meiner AID-Patienten für mich vereinfachen.	1	2	3	4	5	6	7
6. Ich finde Telemedizin für meine AID-Patientenversorgung nicht nützlich.	1	2	3	4	5	6	7
Benutzerfreundlichkeit	Stimme nicht zu						Stimme zu
1. Es würde mir nicht leicht fallen den Umgang mit telemedizinischen Technologien zu erlernen.	1	2	3	4	5	6	7
2. Es würde mir leicht fallen die Telemedizin meinen Bedürfnissen entsprechend einzusetzen.	1	2	3	4	5	6	7
3. Die Benutzung von Telemedizin wäre für mich klar und verständlich.	1	2	3	4	5	6	7
4. Ich finde Telemedizin in der Benutzung inflexibel.	1	2	3	4	5	6	7
5. Es fällt mir nicht leicht mit telemedizinischen Technologien geschickt umzugehen.	1	2	3	4	5	6	7
6. Ich finde Telemedizin leicht anzuwenden.	1	2	3	4	5	6	7

Haltung	Stimme nicht zu						Stimme zu
1. Die Anwendung von Telemedizin in der AID-Patientenversorgung ist eine gute Idee.	1	2	3	4	5	6	7
2. Ich finde die Einführung von Telemedizin für die Versorgung meiner AID Patienten unerfreulich.	1	2	3	4	5	6	7
3. Die Verwendung von Telemedizin würde für mich bei der AID-Patientenversorgung von Nutzen sein.	1	2	3	4	5	6	7
Verwendung	Stimme nicht zu						Stimme zu
1. Ich würde telemedizinische Technologien in der Versorgung von Patienten mit AID nutzen, wenn sie verfügbar wären.	1	2	3	4	5	6	7
2. Ich würde Telemedizin so oft wie nötig bei der AID-Patientenversorgung einsetzen.	1	2	3	4	5	6	7
3. Ich möchte gar keine telemedizinischen Technologien in der AID-Patientenversorgung nutzen.	1	2	3	4	5	6	7
4. Wenn möglich möchte ich keine telemedizinischen Technologien bei der Versorgung von AID-Patienten verwenden.	1	2	3	4	5	6	7
5. Soweit möglich würde ich telemedizinische Technologien für verschiedene Zwecke benutzen.	1	2	3	4	5	6	7
6. Soweit möglich würde ich Telemedizin in der AID-Patientenversorgung regelmäßig nutzen.	1	2	3	4	5	6	7
FRAGEN ZUR APP arcTmobile	Stimme nicht zu						Stimme zu
1. Ich halte die elektronische Dokumentation von Symptomen über die App arcTmobile bei AID-Patienten für sinnvoll.	1	2	3	4	5	6	7
2. Ich glaube, dass meine AID-Patienten das technische Know-How haben, um die App arcTmobile zu benutzen.	1	2	3	4	5	6	7
3. Ich glaube, dass es für meine AID-Patienten keine Hemmschwelle darstellt, eine App zum Symptom-Monitoring zu verwenden.	1	2	3	4	5	6	7
4. Ich denke, dass die Einführung der App arcTmobile zur Verbesserung der Gesundheitskompetenz von Betroffenen und ihren Familien beitragen kann.	1	2	3	4	5	6	7

## Abschnitt 3: Offene Fragen

Bitte notieren sie Ihre Gedanken.

Sollten Sie diese nicht äußern wollen kreuzen Sie bitte N/A an.

1. Welche Bedenken haben Sie bezüglich der Einführung der App arcTmobile?

---

N/A

2. Welche Bedenken haben Sie bezüglich der Einführung von telemedizinischen Sprechstunden/Beratungen?

---

N/A

3. Welche Vorschläge und Ideen haben Sie für die sich noch in der Entwicklung befindliche App arcTmobile?

---

N/A

Vielen herzlichen Dank für Ihre Teilnahme und das Retournieren des Fragebogens via beigelegtem frankiertem Rückumschlag!

## 9 Danksagung

An dieser Stelle möchte ich meinen besonderen Dank nachstehenden Personen entgegenbringen, ohne deren Mithilfe die Anfertigung dieser Dissertation niemals möglich gewesen wäre.

Ich möchte mich ganz herzlich bei meiner Doktormutter Frau Prof. Dr. med. Jasmin Kümmerle-Deschner bedanken, die mir die Möglichkeit gegeben hat, diese Arbeit unter ihrer Leitung durchzuführen. Vielen Dank für die hervorragende Betreuung, stete Beratung und allen voran dein großes Vertrauen in mich und meine Fähigkeiten.

Frau Dr. med. Tatjana Welzel danke ich ganz besonders für die großartige Betreuung. Vielen herzlichen Dank für deine unermüdliche Unterstützung, Zuverlässigkeit und ständige Motivation. Auch für die mühevollen Arbeit des Korrekturlesens und deine außerordentliche Hilfsbereitschaft möchte ich mich ganz herzlich bedanken.

Ganz herzlichen Dank an Herrn Jens Klotsche für die überaus großzügige Hilfestellung bei der statistischen Auswertung des TAM und der großartigen Unterstützung beim Korrekturlesen des Methoden- und Ergebnis-Teils.

Besonderen Dank auch an die gesamte Arbeitsgruppe des arcT, insbesondere Christine Michler für die freundschaftliche Arbeitsatmosphäre, viele wertvolle Anregungen und stete Hilfsbereitschaft, die wesentlich zum Gelingen dieser Arbeit beigetragen haben.

Bei meinen Eltern, Geschwistern, Freund\*innen und Mitbewohner\*innen möchte ich mich ganz besonders herzlich bedanken für die uneingeschränkte und vielseitige Unterstützung und Motivation während meines Studiums, ohne die diese Arbeit so nicht möglich gewesen wäre.