

Bachelor thesis
Belangrijkste barrières bij het open
source maken van
gezondheidseconomische modellen

Demi Veldman (s2754932)
Gezondheidswetenschappen, Bsc
Opdrachtnummer: GZW-232411-1
Begeleiders: dr. Xavier Pouwels,
dr. Nienke Beerlage-de Jong

30-06-2024

Samenvatting

Inleiding: Gezondheidseconomische modellen (GEM) helpen bij het maken van complexe beslissingen in de gezondheidszorg. Door de groeiende mogelijkheden van behandelingen en opeenvolgende therapieën worden deze modellen steeds complexer en dit vergroot de vraag naar transparantie. Open source publicatie kan de transparantie vergroten, dit houdt in dat iedereen die dat wil toegang heeft tot de modellen en de onderliggende informatie. In de praktijk worden niet zoveel modellen open source gepubliceerd, dit komt door meerdere barrières. Echter is niet bekend hoe verschillende stakeholdergroepen tegen deze barrières aan kijken en of hier verschillen in zitten.

Methode: Om te onderzoeken hoe verschillende stakeholdergroepen tegen de barrières van open source publicatie van GEM aan kijken is gebruik gemaakt van kwantitatief en kwalitatief onderzoek. Met een enquête is onderzocht hoe verschillende stakeholdergroepen tegen uit literatuur geïdentificeerde barrières en oplossingen aan kijken, met de mogelijkheid tot eigen input. De enquête is uitgezet onder academici, consultants en medewerkers van farmaceutische bedrijven en overheidsinstanties. Dit omdat de barrières voornamelijk invloed hebben op modelontwikkelaars. Aan de hand van deze enquête zijn respondenten geworven om interviews mee te houden, dit om een beter inzicht te krijgen in de antwoorden die gegeven zijn in de enquête.

Resultaten: De enquête is afgenomen bij in totaal 32 respondenten, waaronder academici (n=19), consultants (n=6), medewerkers van farmaceutische bedrijven (n=3) en overheidsinstanties (n=4). Er zijn in totaal 7 interviews afgenomen waarvan er 4 met academici, 2 met farmaceutische medewerkers en 1 met een consultant. Meer dan 70% van de respondenten vond de volgende barrières relevant: gebrek aan erkenning, de mogelijke openbaarmaking van privacygevoelige of vertrouwelijke data, de tijd en moeite om open source te publiceren en het ontbreken van een beloningssysteem voor open source publicatie. Academici stonden positiever tegenover open source publiceren, mits er voldoende zekerheid en compensatie is voor de benodigde tijd en moeite. Farmaceutische medewerkers en consultants uitten zorgen over de mogelijke openbaarmaking van prijsafspraken en de eigendomsrechten rondom de modellen.

Conclusie: De resultaten suggereren dat er overeenkomsten zijn in de belangrijkste barrières die verschillende stakeholdergroepen ervaren bij het open source maken van GEM, maar dat er ook kleine verschillen lijken te zijn in hoe belangrijk deze barrières zijn aangezien academici in het algemeen wel bereid lijken te zijn om open source te publiceren. Voor de toekomst van open source publicatie is van groot belang om de kennis te verhogen bij modelontwikkelaars en duidelijkheid te creëren in hoe veilig open source te publiceren en om te exploreren hoe een beloningssysteem tot stand kan komen die ook stakeholders zoals farmaceutische bedrijven en consultants motiveert om open source te publiceren.

Inhoudsopgave

1.	Inleiding.....	5
1.1:	Open source modellen als oplossing	5
1.2:	Barrières voor het open source publiceren van modellen.....	5
1.2:	Stakeholders en onderzoeksvraag	6
2.	Methode.....	7
2.1:	Enquête.....	7
2.2:	Interviews	9
3.	Resultaten	9
3.1	Resultaat 1: Enquête.....	9
3.1.1:	Barrières.....	10
3.1.2:	Oplossingen enquête.....	12
3.2:	Resultaat 2: Interviews	14
3.2.1:	Ervaren barrières	14
3.2.2:	Voorgestelde oplossingen.....	14
4.	Discussie.....	15
4.2:	Vergelijking met de literatuur	16
4.3:	Sterkte en zwakke punten	16
4.4:	Toekomstig onderzoek.....	17
4.5:	Praktische relevantie	17
5.	Conclusie.....	17
	Referentielijst	18
	Bijlagen	20
	Bijlage 1: Barrières en oplossingen geïdentificeerd vanuit de literatuur.....	20
	Bijlage 2: Opzet enquête	21
	Bijlage 3: Interviewschema	24
	Bijlage 4: Codes interviews.....	25

Bijlage 5: Relevantie barrières verschillende stakeholdergroepen	26
Bijlage 6: Kort samengevat nog niet benoemde barrières uit de enquête.....	28
Bijlage 7: Welke barrières er weg moeten worden genomen.....	29
Bijlage 8: Aangegeven effectiviteit oplossingen per stakeholdergroep.....	29
Bijlage 9: Uitleg over gegeven effectiviteit bij de oplossingen	31
Bijlage 10: In hoeverre de verschillende instanties als verantwoordelijk worden gezien voor de implementatie van elke oplossing.....	32

1. Inleiding

Door de groeiende mogelijkheden aan behandelingen, de toenemende kosten en toenemende zorgvraag door vergrijzing wordt het nemen van beslissingen in de gezondheidszorg steeds complexer [1]. Gezondheidseconomische modellen (GEM) ondersteunen hierbij door informatie uit verschillende bronnen te combineren, zoals klinische trials en de dagelijkse medische praktijk, om de effecten van verschillende behandelingsmogelijkheden te simuleren op uitkomsten zoals de kwaliteit van leven, overleving en kosten [2]. Hiermee stellen GEM onderzoekers en beleidsmakers in staat complexe aspecten van de gezondheidszorg te beoordelen en te evalueren [2, 3].

De toenemende complexiteit van nieuwe behandelingen en opeenvolgende therapieën zorgen ervoor dat GEM steeds complexer worden. Dit vergroot de vraag naar validatie en transparantie [4]. Echter worden GEM vaak als een ‘black box’ gezien, het is namelijk onduidelijk wat er precies in het model gebeurt doordat niet alles transparant gerapporteerd wordt [5-8]. Dit maakt het lastig om de modellen te begrijpen en te evalueren. Daarnaast verlaagt dit het vertrouwen in GEM [9].

1.1: Open source modellen als oplossing.

Een oplossing voor deze vraag naar transparantie is het open source maken van GEM. Dit betekent dat iedereen die dat wil de modellen kan inzien en toegang heeft tot de onderliggende informatie [10]. Dit maakt het mogelijk om de modellen te valideren en te gebruiken [11]. Het model kan hergebruikt worden doordat de onderliggende code openbaar is, dit heeft als gevolg dat er geen nieuw model ontwikkeld hoeft te worden. Ook kan als er nieuwe data beschikbaar zijn dit aan al bestaande modellen worden toegevoegd om het effect daarvan te bekijken [7]. Daarnaast kunnen aannames die gemaakt zijn over de ziekte of werking van de interventie kritisch worden geëvalueerd maar betere rapportage van het model zou dit ook mogelijk maken [12, 13]. Verder kan ook de kwaliteit van de onderliggende data kritisch worden geëvalueerd [13]. Bovendien kan het open source maken van GEM helpen bij het identificeren van fouten in de modellen, wat bijdraagt aan de validatie van deze modellen [7].

Tenslotte moeten onderzoekers ook meer verantwoording afleggen voor de keuzes die zij maken tijdens het onderzoeksproces [14]. Veel van deze voordelen leiden ertoe dat het algemene onderzoeksproces transparanter wordt.

1.2: Barrières voor het open source publiceren van modellen.

In de praktijk blijkt toch dat maar weinig modellen open source worden gepubliceerd [15]. In de literatuur [11, 12, 14, 16] zijn hier meerdere barrières voor geïdentificeerd. Ten eerste kan het auteursrecht van deze modellen in gevaar komen doordat delen van de code kunnen worden overgenomen zonder referentie naar de originele maker van het model [16]. Sommige

modelontwikkelaars maken daarnaast gebruik van betaalde software om modellen te ontwikkelen, dit maakt hergebruik van de modellen moeilijk en stelt het open source aspect ter discussie [14, 16]. Om het model begrijpelijk te maken dienen er aantekeningen bij de coderegels geplaatst te worden en er zijn achtergronddocumenten nodig met uitleg over het model, dit kost extra tijd en moeite [14, 16]. Bovendien kan iemand met beperkte kennis van de modellen en software in het gebruik hiervan fouten maken, met als gevolg dat er foute conclusies uit het model kunnen worden getrokken [14, 16]. Modelontwikkelaars zullen hier zelf niet verantwoordelijk voor willen zijn, wat dus zorgt voor terughoudendheid in het delen van de modellen [14]. Dit geldt ook voor feit dat het open source maken van GEM helpt bij het identificeren van fouten in de modellen. Dit kan voordelig zijn voor het verbeteren van de modellen maar nadelig voor de carrière en reputatie van de modelontwikkelaar [14]. Daarnaast hebben beleidsmakers vaak weinig interesse in de onderliggende code van GEM aangezien zij zelf al toegang hebben tot de code als er een rapportage bij hen wordt ingediend [11]. Dit heeft als gevolg dat modelontwikkelaars weinig motivatie krijgen om de code openbaar te maken. Verder is niet voor alle modellen die open source gepubliceerd zullen worden zijn afspraken gemaakt wat betreft het onderhoud van de modellen [11]. De laatste barrière heeft betrekking op de privacygevoelige en confidentiële data in GEM. Door de onderliggende informatie bekend te maken, ook al is het geanonimiseerd, bestaat er toch de mogelijkheid dat dit bijvoorbeeld terug te leiden is naar een specifiek persoon [16, 17]. Voor al deze barrières zijn al meerdere oplossingen bedacht zoals het geven van compensatie [16], het verbeteren van kennis van modelontwikkelaars maar ook andere stakeholders [18, 19], het gebruik van licenties [18, 20], het verplicht stellen van open source publicatie [11, 18] of het gebruik van dummy data [16]. Echter worden nog niet al deze oplossingen momenteel toegepast.

1.2: Stakeholders en onderzoeksvraag

Om modelontwikkelaars te stimuleren om open source te publiceren zullen deze barrières weggenomen moeten worden en zal dus onderzocht moeten worden hoe stakeholders naar deze barrières en oplossingen aan kijken. Verschillende stakeholders hebben vaak verschillende belangen dus is het belangrijk om te kijken welke barrières zij zien als essentieel om opgelost te worden. In de literatuur wordt er nog weinig onderscheid tussen stakeholdergroepen gemaakt. Er zijn drie groepen stakeholders die te maken hebben met GEM: de eerste groep die zich bezighoudt met het ontwikkelen, evalueren en managen van de modellen, de tweede groep die invloed uitoefent op de modellen en een derde groep die beïnvloed wordt door de modellen. Onder de eerste groep vallen consultancy agencies, onderzoeksorganisaties, het bedrijfsleven (farmaceutische bedrijven bijvoorbeeld) en HTA-organisaties (zoals Zorginstituut Nederland). Onder de tweede groep vallen uitgevers van wetenschappelijke tijdschriften en professionele organisaties zoals The Professional Society for Health Economics and Outcomes Research (ISPOR) [21]. De laatste groep bestaat uit de algemene bevolking

aangezien de modellen invloed kunnen hebben op de beslissingen die beleidsmakers maken zoals de mate van toegang tot zorg en de keuze van behandelingen [14].

Dit onderzoek gaat zich richten op het identificeren van de belangrijkste barrières voor de stakeholders, de focus ligt hier op de eerste groep stakeholders die zich bezighoudt met het ontwikkelen van modellen. Hier is voor gekozen omdat een groot deel van de barrières een directe invloed heeft op deze groep, maar ook om het onderzoek af te bakenen. Om deze reden worden de volgende stakeholders betrokken: academici, consultants en medewerkers van farmaceutische bedrijven en overheidsinstanties. Er wordt ook gekeken of er een verschil zit tussen de groepen in welke barrières als belangrijk worden aangegeven. Als hier namelijk verschillen in zitten, dan vraagt dit eerst om een consensus wat betreft het oplossen van deze barrières en welke als eerst aangepakt dienen te worden. Hieruit volgt de volgende onderzoeksvraag:

“Wat zijn de belangrijkste barrières bij het open source maken van gezondheidseconomische modellen voor verschillende stakeholders zoals academici, farmaceutische bedrijven, consultancy agencies en overheidsinstanties?”

En de volgende deelvragen:

1. Welke barrières zijn er bij het open source maken van gezondheidseconomische modellen?
2. Hoe rangschikken academici, werknemers van farmaceutische bedrijven, werknemers van adviesbureaus en werknemers van overheidsinstanties de verschillende barrières?
 - a. Zitten er verschillen in deze rangschikkingen?
3. Wat zijn mogelijke oplossingen die al in de literatuur geïdentificeerd zijn voor deze barrières?
4. Wat is de mening van academici, werknemers van farmaceutische bedrijven en werknemers van consultancy agencies over deze oplossingen?
5. Wie moeten volgens academici, werknemers van farmaceutische bedrijven en werknemers van adviesbureaus verantwoordelijk zijn voor het uitvoeren van de oplossingen?

2. Methode

Om de onderzoeksvraag en deelvragen te beantwoorden is er gebruik gemaakt van een combinatie van kwantitatief en kwalitatief onderzoek. Hierbij is gebruik gemaakt van een enquête en interviews.

2.1: Enquête

De respondenten voor de enquête zijn geworven via het netwerk van de begeleider. Respondenten moesten aan de volgende inclusiecriteria voldoen:

- Momenteel werkzaam bij een onderzoeksinstelling, farmaceutisch bedrijf, consultancy agency of een overheidsinstantie.
- Ontwikkelt of evalueert gezondheidseconomische modellen.

Voordat de enquête werd opgestuurd is deze eerst door de begeleider en twee personen buiten het onderzoek beoordeeld, dit om de validatie te waarborgen maar ook voor de compleetheid en

begrijpbaarheid. De enquête is op 30 april 2024 via de e-mail opgestuurd naar 42 mensen uit het netwerk van de begeleider en is op 2 mei ook op LinkedIn gedeeld. In beide berichten is gevraagd om de enquête verder te delen met anderen. Op 13 mei is er nog een herinnering gestuurd via de mail en is de enquête op LinkedIn opnieuw gedeeld om de respons te vergroten.

De enquête is in het Engels uitgezet om het bereik hiervan te vergroten. De enquête begon met achtergrondinformatie over het onderwerp, gevolgd door een ‘informed consent’ formulier. Daarna volgde een sectie met drie vragen over de werkomgeving van de respondent. Vervolgens werd ingegaan op de barrières, deze zijn bepaald aan de hand van literatuur (zie Bijlage 1: Barrières en oplossingen geïdentificeerd vanuit de literatuur voor de barrières). Hierbij werden in totaal vijf vragen gesteld met een eerste vraag over de toegevoegde waarde van open source modellen in de gezondheidseconomie; een vraag over de relevantie van de barrières; een vraag waarbij de barrières gerangschikt moesten worden; een open vraag waarbij respondenten de mogelijkheid kregen om aanvullende barrières te benoemen en een vraag over welke barrières voor de respondent weggenomen moesten worden om open source te gaan publiceren. Hierna kwam een sectie over de oplossingen, ook deze zijn bepaald aan de hand van literatuur (zie bijlage 1) en er werden in totaal tien vragen gesteld met eerst een vraag over de effectiviteit van de oplossingen; een open vraag waarbij toelichting gegeven kon worden over de benoemde effectiviteit; per oplossing een vraag over wie er verantwoordelijk was voor de uitvoering hiervan en een open vraag waarbij aanvullende oplossingen benoemd konden worden. De enquête werd afgesloten met een open vraag waarbij respondenten hun e-mailadres konden achterlaten als ze open stonden voor een vervolginterview. In bijlage 2 is de enquête te zien. Waar mogelijk is gebruik gemaakt van een 5-punts Likertschaal (vraag 8 en 12), deze ging of over relevantie (van zeer relevant tot zeer irrelevant) of overeenstemming (zeer mee eens tot zeer oneens). Er is gekozen voor een Likertschaal aangezien hiermee meningen gekwantificeerd kunnen worden op een gevalideerde manier [22].

De gegevens van de enquête zijn in R 4.1.2 [23] geanalyseerd. De persoonskarakteristieken van de respondenten zijn vastgesteld met behulp van frequentiematen. Vervolgens is er een algemene rangschikking gemaakt voor het belang van de barrières. Dit is met een scoringssysteem gedaan waarbij een barrière op plek 1 een score van 1 kreeg, op plek 2 een score van 2, enzovoort, en hiermee is een gemiddelde score per barrière berekend. Per stakeholdergroep is dit nogmaals gedaan. Daarna is er voor alle Likertschaal vragen en de meerkeuzevragen gekeken hoeveel procent van de respondenten voor elk antwoordmogelijkheid koos, dit is wederom ook per stakeholdergroep gedaan. In Excel versie 2403 (Build 16.0.17425.20236) zijn de figuren en tabellen gemaakt.

De open vragen uit de enquête zijn gecodeerd in een tabel. De thema's die hierbij geplaatst zijn kwamen vanuit de vraag uit de enquête waarop het antwoord betrekking heeft, dus bij de vraag of de respondent zelf nog een oplossing, nog niet benoemd in de enquête, kon benoemen hoorde het thema: ‘nieuwe oplossingen’. Vervolgens is er per thema gekeken wat hierover gezegd is en of dezelfde

mening over een onderwerp vaker naar voren kwam. Een medestudent heeft een deel van de coderingen gecontroleerd ter validatie en ook de begeleider heeft gekeken naar antwoorden die onduidelijk waren.

2.2: Interviews

Aan de hand van de enquête zijn respondenten geworven om interviews mee te houden. Dit om verdieping te krijgen in de gegeven antwoorden. Niet alle barrières en oplossingen zijn besproken tijdens deze interviews omwille de tijd, er is hierbij gekeken naar de barrières die als zeer relevant werden gezien of als zeer of waarschijnlijk irrelevant door de desbetreffende respondent. Ditzelfde is gedaan met de oplossingen, in bijlage 3 is het interviewschema hiervan te zien. Daarnaast zijn nog de antwoorden van de open vragen besproken met de focus op het antwoord van de desbetreffende respondent en op antwoorden die bij meerdere respondenten overeenkwamen. De interviews zijn opgenomen en na afloop getranscribeerd met behulp van Teams en Word. Eerst zijn deze opgestuurd naar de geïnterviewden ter validatie en eventuele aanvullingen. Vervolgens zijn in Atlas.ti [24] codes aan de interviews toegevoegd en bijbehorende codegroepen (deze zijn te zien in bijlage 4). De codes zijn deels van tevoren vastgesteld aan de hand van de enquête en dit zijn codes zoals: ‘Software’ en ‘Nieuwe barrières’ maar daarnaast zijn er aan de hand van de interviews nog andere codes toegevoegd zoals: ‘Voordelen open source’ of ‘Educatie’. Per code is gekeken wat er over elk onderwerp is gezegd. Een medestudent heeft van twee interviews de codering gecontroleerd ter validatie.

3. Resultaten

In dit hoofdstuk worden per onderzoeksmethode de resultaten gedeeld.

3.1 Resultaat 1: Enquête

De enquête heeft in totaal 32 respondenten. Tabel 1 toont de persoonskarakteristieken. Onder 'Anders' bij Werkactiviteit is bijvoorbeeld vermeld dat een respondent zowel modellen ontwikkelt als evalueert.

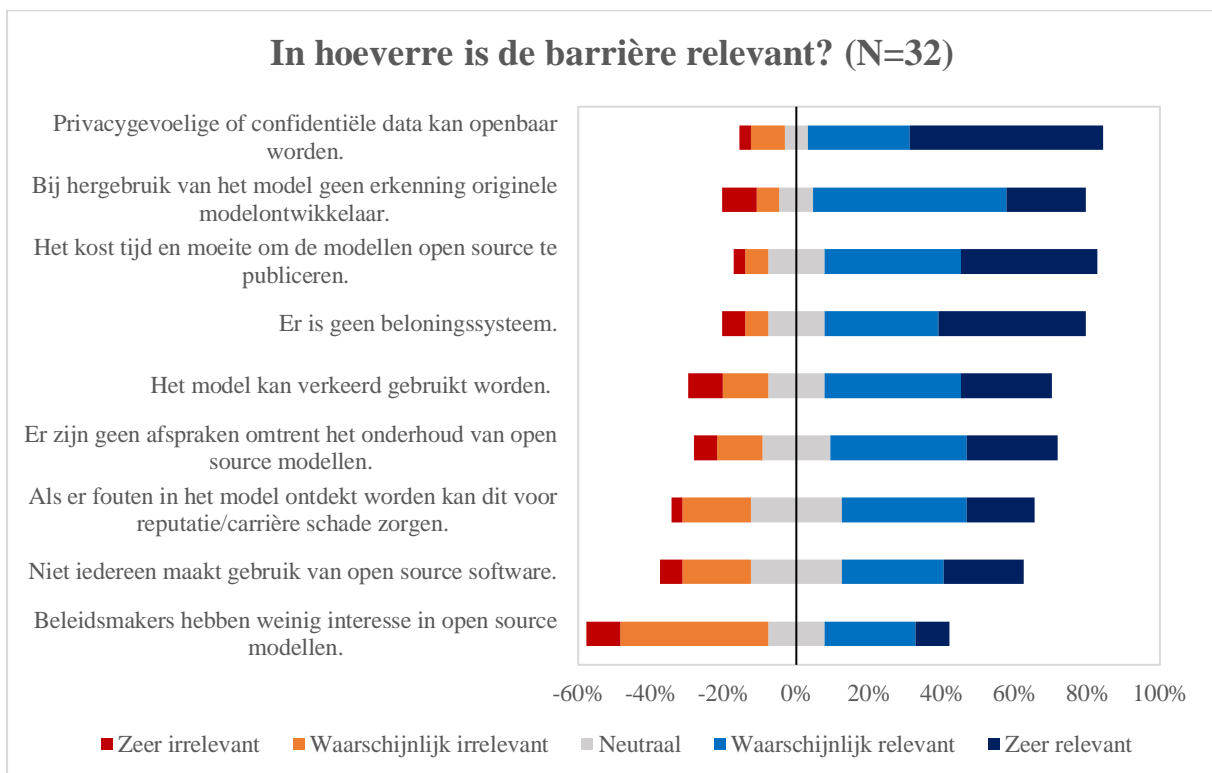
Tabel 1: Persoonskarakteristieken respondenten

N=32	n	%
Groep		
Consultancy	6	18,8
Onderzoeker	19	59,4
Overheidsinstantie	4	12,5
Farmaceutisch bedrijf	3	9,3
Werkactiviteit		
Ontwikkelen van modellen	25	78,1
Evalueren van modellen	4	12,5
Anders	3	9,4
Ervaring (in jaren)		
0-2	3	9,4
2-5	8	25,0
5-10	9	28,1
10+	12	37,5

Een grootdeel van de respondenten (71%, n=22) zien het publiceren van open source modellen als zeer waardevol in de gezondheidseconomie, overig deel (29%, n=9) als redelijk waardevol.

3.1.1: Barrières

Per barrière is gevraagd in hoeverre deze als relevant wordt gezien. In figuur 1 zijn hier de resultaten van te zien. Hierin is te zien dat de helft van de respondenten (50%, n=16) de barrière ‘Geen interesse beleidsmakers’ als (zeer of waarschijnlijk) irrelevant ziet. Vier van de negen barrières worden door meer dan 70% van de respondenten als relevant gezien, dit zijn: ‘Privacy/confidentiële data’ (81,2%, n=26), ‘Gebrek aan erkenning’ (75%, n=24), ‘Tijd en moeite’ (75%, n=24) en ‘Geen beloningssysteem’ (71,8%, n=23). Zelfs 100% (n=3) van de farmaceutische medewerkers geeft aan de barrière ‘Privacy/confidentiële data’ als zeer relevant te zien. Bij de meeste stakeholdergroepen geeft meer dan 65% van elke afzonderlijke groep aan ‘Gebrek aan erkenning’ als een relevante barrière te zien, alleen voor consultants is deze van minder belang (33,3%, n=2). Ook bij de barrière ‘Risico op misbruik’, vindt consultants deze van minder belang (33,3%, n=2) ten opzichte van de andere stakeholdergroepen. In bijlage 5 is de aangegeven relevantie per barrière per stakeholdergroep te zien.



Figuur 1: De relevantie van barrières bij het open source publiceren van GEM volgens de respondenten.

De respondenten kregen ook de optie om barrières te benoemen die nog niet in de enquête zaten. Hierbij zijn 13 antwoorden in totaal gegeven. Een barrière die hierbij vaker naar voren kwam was dat het zelfvertrouwen en de technische skills ontbreken om open source te publiceren (n=3) een respondent heeft hier namelijk geantwoord: “People worry that their standard of coding is lower than other researchers”. Andere barrières waren dat modellen die open source gepubliceerd worden vaak

niet toepasbaar zijn in de praktijk (n=3) en dat vaak meerdere partijen zichzelf als eigenaar van een model zien (n=2). In bijlage 6 zijn alle barrières te zien die benoemd zijn bij deze vraag.

In tabel 2 zijn de gemiddelde rangschikkingen te zien voor alle respondenten en per stakeholdergroep. Bij deze vraag ging het erover welke barrières als eerst geadresseerd dienden te worden. Met kleuren is aangegeven welke 3 bovenaan staan en welke 3 onderstaan bij de algemene rangschikking. Die van de algemene groep en de onderzoekers komen het meest overeen, maar dit zal waarschijnlijk komen door de relatief grote groepsgrootte van de onderzoekers. Alle groepen hebben de barrières ‘Tijd en moeite’ en ‘Privacy/confidentiële data’ redelijk hoog geplaatst en de barrière ‘Geen interesse beleidsmakers’ staat relatief laag. Er zijn kleine verschillen tussen de groepen te zien: de barrière ‘Reputatie/carrière schade’ is door medewerkers van overheidsinstanties en consultants relatief laag gezet, ‘Geen afspraken onderhoud’ weer relatief hoog door medewerkers van overheidsinstanties en farmaceutische bedrijven. ‘Geen gebruik van open source software’ is dan weer relatief hoog geplaatst door consultants en ‘Reputatie/carrière schade’ is relatief hoog geplaatst door medewerkers van farmaceutische bedrijven en onderzoekers.

Tabel 2: Rangschikkingen van welke barrières als eerst geadresseerd dienen te worden voor verschillende stakeholders.

Plek	Algemeen (n=32)	Onderzoekers (n=19)
1	Privacy/confidentiële data	Tijd en moeite
2	Tijd en moeite	Privacy/confidentiële data
3	Gebrek aan erkenning	Gebrek aan erkenning
4	Geen beloningssysteem	Reputatie/carrière schade
5	Risico op misbruik	Geen beloningssysteem
6	Reputatie/carrière schade	Risico op misbruik
7	Geen gebruik van open source software	Geen gebruik van open source software
8	Geen afspraken onderhoud	Geen afspraken onderhoud
9	Geen interesse beleidsmakers	Geen interesse beleidsmakers

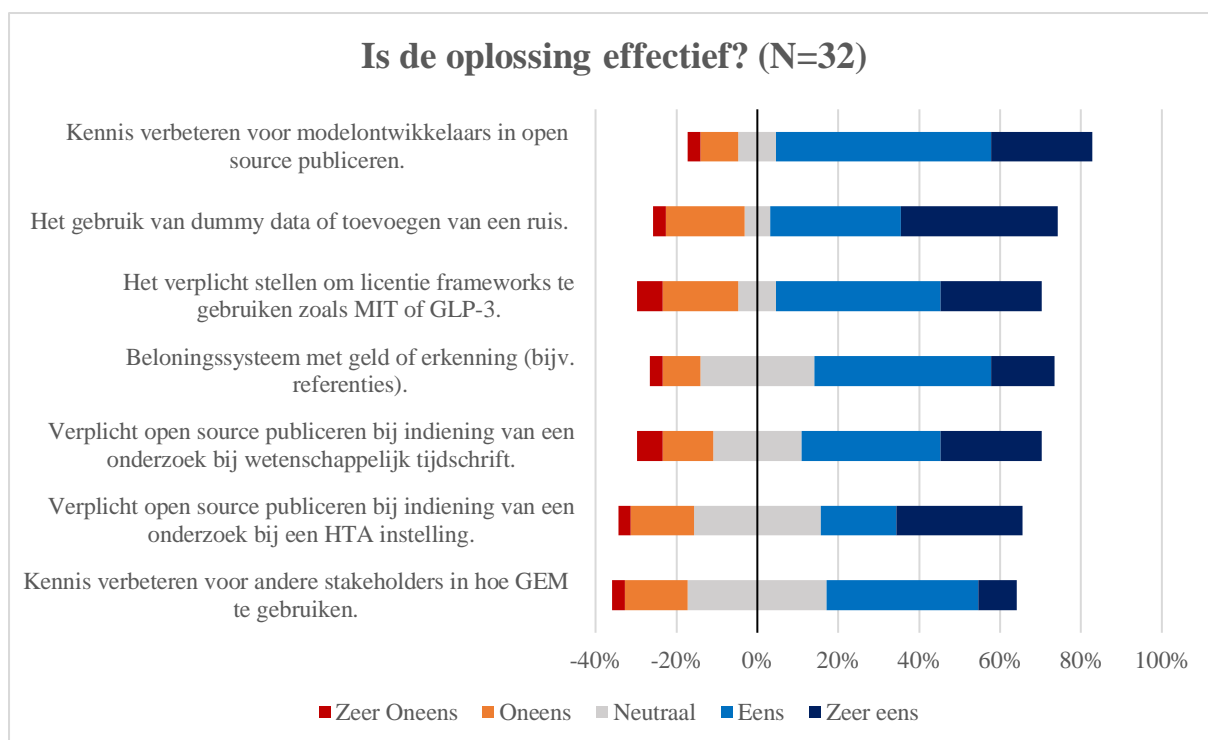
Plek	Consultancy (n=6)	Overheidsinstanties (n=4)	Farma (n=3)
1	Privacy/confidentiële data	Privacy/confidentiële data	Privacy/confidentiële data
2	Tijd en moeite	Tijd en moeite	Tijd en moeite
3	Gebrek aan erkenning	Geen afspraken onderhoud	Reputatie/carrière schade
4	Geen gebruik van open source software	Geen beloningssysteem	Geen afspraken onderhoud
5	Geen beloningssysteem	Gebrek aan erkenning	Risico op misbruik
6	Risico op misbruik	Geen gebruik van open source software	Gebrek aan erkenning
7	Geen interesse beleidsmakers	Risico op misbruik	Geen interesse beleidsmakers
8	Geen afspraken onderhoud	Reputatie/carrière schade	Geen beloningssysteem
9	Reputatie/carrière schade	Geen interesse beleidsmakers	Geen gebruik van open source software

Er is ook gevraagd aan de respondenten welke barrières er weg moesten worden genomen om wel open source te gaan publiceren. In bijlage 7 zijn hier de resultaten van te zien, maar deze komen deels overeen met de rangschikking en de relevantie per barrière zoals hierboven al is genoemd. De meest

benoemde barrières zijn: ‘Privacy/confidentiële data’ (48,3%, n=14), ‘Tijd en moeite’ (44,8%, n=13) en ‘Gebrek aan erkenning’ (34,5%, n=10).

3.1.2: Oplossingen enquête

In figuur 2 is te zien in welke mate de oplossingen als effectief worden gezien. Meer dan 70% van de respondenten vindt twee van de zeven oplossingen effectief: het verbeteren van kennis voor modelontwikkelaars (78,1%, n=25) en het gebruik van dummy data of het toevoegen van een ruis (71,0%, n=22). Daarnaast is 25% (n=8) van mening dat het verplicht stellen van het gebruik van licenties geen effectieve oplossing zou zijn, hiervoor is bij de open vraag door een respondent als uitleg gegeven dat er toch geen handhaving zou zijn indien een model toch zonder erkenning wordt gebruikt: *“No modeler will get the support needed to actually sue someone if they misuse the model”*. Bij de open vraag (ingevuld door 14 respondenten) zijn twee oplossingen het meest besproken: het ontbreken van een beloningssysteem (n=10) en het verplicht open source publiceren bij indiening van een onderzoek bij een HTA-instelling (n=10). Bij het ontbreken van een beloningssysteem is gemixt gereageerd waarbij de ene respondent het als iets positiefs (40%, n=4) ziet, maar de ander het als niet realistisch of dat dit niet zal werken voor het bedrijfsleven (40%, n=4). Een respondent heeft het volgende namelijk geantwoord: *“It may work for academia, but not for pharma/consulting”*. Bij het verplicht om open source te publiceren bij het indienen van een onderzoek bij een HTA-instelling reageert een deel positief (30%, n=3) met als reden bijvoorbeeld dat het verplicht stellen ook een manier is om compensatie te kunnen vragen. Echter zijn anderen nog niet overtuigd (n=5, 50%) vanwege de vertrouwelijke informatie in deze modellen, een respondent heeft hierop het volgende geantwoord: *“This would be a breach of pharmaceutical companies confidentiality”*. In bijlage 8 is per stakeholdergroep de aangegeven effectiviteit te zien en in bijlage 9 is kort samengevat wat er bij de open vraag is geantwoord per oplossing.



Figuur 2: Effectiviteit van elke oplossing voor het open source publiceren van GEM volgens alle respondenten.

In bijlage 10 is te zien wie er in welke mate verantwoordelijk wordt geacht voor de implementatie van elke oplossing. In tabel 3 hieronder is samengevat welke instantie hierbij het vaakst is benoemd met bijbehorende percentages.

Tabel 3: Welke instantie als meest verantwoordelijk wordt gezien voor de implementatie van elke oplossing.

N=31	Welke instantie is verantwoordelijk (%)	n
Kennis verbeteren voor modelontwikkelaars in open source te publiceren.	Academici (45)	31
Kennis verbeteren voor andere stakeholders in hoe GEM te gebruiken.	Academici (34)	29
Verplicht stellen om licenties te gebruiken zoals MIT.	HTA instellingen (33)	30
Het gebruik van dummy data of toevoegen van een ruis.	Academici (47)	30
Verplicht open source publiceren bij indiening van een onderzoek bij een HTA-instelling.	HTA instellingen (84)	31
Verplicht open source publiceren bij indiening van een onderzoek bij wetenschappelijk tijdschrift.	Uitgevers van wetenschappelijke tijdschriften (90)	31
Beloningssysteem met geld of erkenning (bijv. referenties)	Uitgevers van wetenschappelijke tijdschriften (32)	28

Voor het verplichten van OSM bij het publiceren in wetenschappelijke tijdschriften en de beloningssystemen met geld of erkenning werden daarnaast aanvullende instanties benoemd, namelijk onderzoeksfinanciers. Wat hierbij te zien is dat bij twee oplossingen meer dan 80% van de respondenten dezelfde partij als verantwoordelijk ziet: het verplicht stellen om open source te publiceren als een onderzoek wordt ingediend bij een HTA-instelling of wetenschappelijk tijdschrift. Dit zou hoogstwaarschijnlijk komen door het feit dat deze instellingen al in de oplossing zelf benoemd

worden. Verder wordt er niet een duidelijke instantie als verantwoordelijk voor de implementatie van een oplossing gezien.

Als laatste vraag konden respondenten nog nieuwe oplossingen voorstellen. Deze vraag is door 7 respondenten ingevuld. Twee respondenten benoemden het faciliteren van het publiceren van modellen zonder de onderliggende gegevens. Daarnaast kwam naar voren het delen van positieve ervaringen rondom het open source publiceren (n=1) en het creëren en ontwikkelen van richtlijnen in hoe open source te publiceren (n=1).

3.2: Resultaat 2: Interviews

Uiteindelijk zijn er in totaal zeven interviews afgenomen, waarvan er vier met onderzoekers, één met een consultant en twee met medewerkers van farmaceutische bedrijven.

3.2.1: Ervaren barrières

Met meerdere respondenten (n=6) is gesproken over de privacy problemen bij het open source publiceren. Hierbij hebben meerdere respondenten (n=3) de prijsafspraken benoemd en de angst om per ongeluk data te publiceren waarvan dat legaal gezien niet mag (n=2). Een respondent zei hier het volgende op: *“If I were to publish it, I really need to make sure that I don't publish anything that's confidential because of all the sort of legality”*. Bij de barrière over tijd en moeite zien meerdere respondenten (n=6) het gebrek aan tijd als een probleem en dat deze elders beter besteed kan worden. Daarnaast hebben respondenten vanuit het bedrijfsleven (n=2) gezegd zelf geen eigenaar van het model te zijn en dit daardoor dus niet zonder toestemming open source te kunnen publiceren.

3.2.2: Voorgestelde oplossingen

Een ander onderdeel vanuit de enquête die tijdens die interviews is besproken zijn de oplossingen. Met meerdere respondenten (n=6) is gesproken over het beloningssysteem. De farmaceutische medewerkers en consultant (n=3) zien hierbij niet een beloning dat voor hen zou werken een farmaceutische medewerker zei hier het volgende over: *“I just don't think the incentive itself would make me publish or not publish anything open source”*. De academici (n=3) zien een compensatie wel als een motivatie voor hen om open source te publiceren. Hier zijn wel verschillende vormen van compensatie genoemd zoals het krijgen van referenties, het opbouwen van een reputatie, het ontvangen van extra beurzen en carrièremogelijkheden. Over het gebruik van dummydata is elke respondent die daarover iets gezegd heeft positief (n=5). Het standaardiseren van software wordt gezien als een goede oplossing (n=4) maar tegelijkertijd moet het gebruik van betaalde software ook geen belemmering zijn voor de modelontwikkelaar om wel of niet open source te publiceren (n=3) een respondent heeft hier het volgende over gezegd: *“Het gebruik van betaalde software is niet echt een barrière om het (open source publiceren) niet te doen, maar aan de andere kant is open source software wel de toekomst”*. Een nog niet benoemde oplossing die besproken is (n=1), is het creëren

van een richtlijn voor modelontwikkelaars in hoe open source te publiceren en welke stappen hiervoor ondernomen moeten worden. Deze richtlijn werd vergeleken met de CHEERS-richtlijnen [25].

4. Discussie

De vraag die centraal in dit onderzoek stond was: *“Wat zijn de belangrijkste barrières bij het open source maken van gezondheidseconomische modellen voor verschillende stakeholders zoals academici, farmaceutische bedrijven, consultancy agencies en overheidsinstanties?”*. De resultaten suggereren dat van de barrières uit de literatuur volgens de respondenten uit dit onderzoek de meest belangrijk waren dat privacygevoelige of confidentiële gegevens naar buiten kunnen komen bij het open source maken van GEM; de extra tijd en moeite die het kost om modellen open source te maken en dat er geen beloningssysteem is voor open source publiceren. De eerste twee genoemde barrières staan voor alle stakeholders bovenaan en kunnen hiermee ook wel de meest belangrijke worden genoemd.

De mate waarin een barrière als relevant wordt gezien lijkt te verschillen. Alle farmaceutische medewerkers geven elke keer aan de barrière van privacygevoelige en vertrouwelijke gegevens als zeer relevant te zien. Vanuit de interviews zijn verschillen te vinden in hoe de partijen naar prikkels kijken om open source te gaan publiceren. Sommige academici geven de voorkeur aan compensatie voor de tijd die het kost om open source te publiceren, terwijl anderen de reputatie en academische status als beloning zien. Farmaceutische medewerkers en consultants zien niet dat een beloningssysteem hen zou motiveren om open source te publiceren aangezien andere barrières van groter belang zijn zoals de vertrouwelijke informatie in de modellen.

Vanuit de oplossingen blijkt ook dat het vergroten van kennis van modelontwikkelaars als belangrijk wordt gezien. Er is angst/onzekerheid als het gaat om mogelijke fouten in gepubliceerde modellen. Educatie kan die angst mogelijk wegnemen door te leren hoe veilig open source te publiceren maar ook om de technische vaardigheden aan te leren, een barrière die meerdere keren is benoemd. Initiatieven zoals ‘Decision Analysis in R for Technologies in Health’ (DARTH) [26] bieden al educatiemateriaal aan. Daarnaast zijn de stakeholders ook redelijk positief over het gebruik van dummy data of het toevoegen van een ruis. Een andere oplossing die benoemd is, is het creëren van richtlijnen, vergelijkbaar met de CHEERS-richtlijnen [25], waarbij dus duidelijk kan worden welke licenties te gebruiken en hoe open source te publiceren, ook deze oplossing kan mogelijk de angst/onzekerheid die eerder benoemd is wegnemen.

4.2: Vergelijking met de literatuur

Bij een vergelijkbaar onderzoek [11] waarbij ook een enquête werd gehouden onder modelontwikkelaars in de gezondheidseconomie kwam ook uit dat een belangrijke barrière voor hen de mogelijke openbaarmaking is van privacygevoelige en vertrouwelijke data [11]. In dit onderzoek werd echter geen onderscheid gemaakt tussen de verschillende stakeholdergroepen. Bij een ander onderzoek [27] met de focus op barrières bij het publiceren van open data (dus geen modellen) werd ook het gebrek aan tijd en middelen als een belangrijke barrière gezien. Daarnaast kwam hierin ook naar voren dat een risk-aversie cultuur ook een barrière vormt. Dit zou kunnen worden gelinkt aan bevindingen uit dit onderzoek waarbij respondenten hebben aangegeven bang zijn om per ongeluk data te publiceren waarvan dat legaal gezien niet mag, of fouten te maken in de modellen. Daarnaast bleek uit een ander onderzoek [28] naar de intrinsieke motivatie van programmeurs waarom zij bijdragen aan open source software dat het opbouwen van een reputatie van groot belang is voor hen, dit is ook iets wat in de interviews werd gezegd in dit onderzoek.

4.3: Sterkte en zwakke punten

Een sterke kant van dit onderzoek is de multi-method benadering, waarbij enquêtes en interviews zijn gebruikt om antwoorden te krijgen op de hoofd- en deelvragen. Deze combinatie van kwantitatieve data uit de enquête en kwalitatieve inzichten via interviews zorgt voor extra kennis ter ondersteuning van het beantwoorden van de onderzoeksvragen. Daarnaast is de transcriptie van de interviews gecontroleerd door de respondenten en zijn de coderingen van de interviews en enquête gecontroleerd door medestudenten dit zorgt ervoor dat de kans op fouten hierin lager is waardoor de validiteit van het onderzoek vergroot is.

Echter zijn er ook enkele beperkingen. Er bestaat de kans dat de steekproef niet representatief is voor de grotere doelgroep, dit tast de externe validiteit van het onderzoek aan. Dit kan meerdere oorzaken hebben zoals de kleine steekproefgrootte van de enquête (n=32) en interviews (n=7). Daarnaast was er sprake van een oververtegenwoordiging van onderzoekers bij de enquête (59%, n=19) en interviews (57%, n=4) en verder ontbrak het perspectief van een medewerker van een overheidsinstantie bij de interviews. Tenslotte zijn de respondenten geworven via het netwerk van de begeleider, hierdoor is er hoogstwaarschijnlijk geen sprake van een representatieve steekproef voor de Health Economics and Outcomes Research (HEOR) community. Dit laatste is echter gedaan om de steekproef zo groot mogelijk te maken.

Iets wat de interne validiteit van het onderzoek kan aantasten is dat niet alle vragen in de enquête op eenzelfde manier zijn geïnterpreteerd. Termen zoals 'effectiviteit' en de definitie van een open source model (alleen de code of ook de data) zijn niet uitgelegd. Daarnaast bleek uit de open vragen in de enquête dat er ook nog barrières waren die niet zijn meegenomen in de rangschikking en de relevantie vragen, waardoor de antwoorden mogelijk niet compleet zijn. In de interviews zijn de barrières

besproken die door meerdere respondenten werden benoemd in de enquête als ontbrekend, om dit deels op te vangen.

4.4: Toekomstig onderzoek

Om de bovengenoemde beperkingen weg te nemen zou toekomstig onderzoek verschillende aspecten moeten overwegen. Er zou gebruik gemaakt moeten worden van verschillende wervingsstrategieën om een representatieve populatie te verkrijgen voor de HEOR-community en om de steekproef te vergroten. Met aanvullende methoden zoals focusgroepen kan een dieper inzicht worden verkregen in de interpretatie van de vragen. Daarnaast kan hiermee worden gezorgd dat alle relevante barrières worden bediscussieerd en om stakeholdergroepen met elkaar in gesprek te brengen over de verschillen in belangen in barrières, dit kan ook worden gedaan om een poging tot consensus te krijgen.

4.5: Praktische relevantie

Belangrijk voor de toekomst van open source modellen is het creëren van duidelijkheid. Er bestaat angst en/of onzekerheid rondom het omgaan met de gevoelige en vertrouwelijke informatie. Er zal moeten worden gekeken naar het ontwikkelen van richtlijnen of het geven van workshops waarin men leert hoe veilig open source te publiceren en welke licenties geschikt zijn.

Daarnaast is het van belang dat er een vorm van compensatie moet komen voor de tijd en moeite die het kost om modellen open source te publiceren. Het is echter onduidelijk hoe die compensatie er uit moet zien aangezien iedereen op een andere manier gemotiveerd wordt. Voor het bedrijfsleven is er nog meer nodig om hen open source te laten publiceren. Het is voor hen nog onduidelijk wat het directe voordeel hiervan is. Vervolgstappen zullen zich er dus op moeten richten om duidelijk beeld te krijgen wat de voordelen voor het bedrijfsleven zijn om open source te publiceren of om te kijken hoe deze gecreëerd kunnen worden.

5. Conclusie

Dit onderzoek benadrukt wat mogelijk de belangrijkste barrières zijn bij het open source publiceren van GEM, het gaat hierbij om privacygevoelige en vertrouwelijke informatie die mogelijk bekend kunnen worden en de tijd en moeite die het kost om open source te publiceren. Hoewel er verschillen zijn in hoe deze barrières door verschillende stakeholders worden beoordeeld, is in de resultaten te zien dat educatie en duidelijke richtlijnen essentieel zijn voor het verkleinen van deze barrières. Vervolgonderzoek is nodig om definitief vast te stellen wat de belangrijkste barrières zijn bij het open source publiceren van GEM.

Referentielijst

1. RIVM: Zorguitgaven blijven tot 2060 stijgen, gemiddeld met 2,8 procent per jaar. <https://www.rivm.nl/nieuws/zorguitgaven-blijven-tot-2060-stijgen-gemiddeld-met-28-procent-per-jaar> (2020). Accessed 27 Mar 2024.
2. Brennan A, Akehurst R. Modelling in Health Economic Evaluation. *Pharmacoeconomics*. 2000;17(5):445-59. doi: 10.2165/00019053-200017050-00004.
3. Sun X, Faunce T. Decision-analytical modelling in health-care economic evaluations. *The European Journal of Health Economics*. 2008;9(4):313-23. doi: 10.1007/s10198-007-0078-x.
4. Feenstra T, Corro-Ramos I, Hamerlijnck D, van Voorn G, Ghabri S. Four Aspects Affecting Health Economic Decision Models and Their Validation. *Pharmacoeconomics*. 2022;40(3):241-8. doi: 10.1007/s40273-021-01110-w.
5. Adarkwah CC, van Gils PF, Hiligsmann M, Evers SMAA. Risk of bias in model-based economic evaluations: the ECOBIAS checklist. *Expert Review of Pharmacoeconomics & Outcomes Research*. 2016;16(4):513-23. doi: 10.1586/14737167.2015.1103185.
6. Saltelli A, Aleksankina K, Becker W, Fennell P, Ferretti F, Holst N, et al. Why so many published sensitivity analyses are false: A systematic review of sensitivity analysis practices. *Environmental Modelling & Software*. 2019;114:29-39. doi: <https://doi.org/10.1016/j.envsoft.2019.01.012>.
7. Cohen JT, Wong JB. Can Economic Model Transparency Improve Provider Interpretation of Cost-Effectiveness Analysis? A Response. *Med Care*. 2017;55(11):912-4. doi: 10.1097/mlr.0000000000000811.
8. McManus E, Turner D, Gray E, Khawar H, Okoli T, Sach T. Barriers and Facilitators to Model Replication Within Health Economics. *Value in Health*. 2019;22(9):1018-25. doi: <https://doi.org/10.1016/j.jval.2019.04.1928>.
9. Saltelli A, Bammer G, Bruno I, Charters E, Di Fiore M, Didier E, et al. Five ways to ensure that models serve society: a manifesto. *Nature*. 2020;582:482-4. doi: 10.1038/d41586-020-01812-9.
10. Dunlop WCN, Mason N, Kenworthy J, Akehurst RL. Benefits, Challenges and Potential Strategies of Open Source Health Economic Models. *Pharmacoeconomics*. 2017;35(1):125-8. doi: 10.1007/s40273-016-0479-8.
11. Pouwels X, Sampson CJ, Arnold RJG. Opportunities and Barriers to the Development and Use of Open Source Health Economic Models: A Survey. *Value Health*. 2022;25(4):473-9. doi: 10.1016/j.jval.2021.10.001.
12. Carlson JJ, Walton SM, Basu A, Chapman RH, Campbell JD, McQueen RB, et al. Achieving Appropriate Model Transparency: Challenges and Potential Solutions for Making Value-Based Decisions in the United States. *Pharmacoeconomics*. 2019;37(11):1321-7. doi: 10.1007/s40273-019-00832-2.
13. Huston P, Edge VL, Bernier E. Reaping the benefits of Open Data in public health. *Can Commun Dis Rep*. 2019;45(11):252-6. doi: 10.14745/ccdr.v45i10a01.
14. Sampson CJ, Arnold R, Bryan S, Clarke P, Ekins S, Hatswell A, et al. Transparency in Decision Modelling: What, Why, Who and How? *Pharmacoeconomics*. 2019;37(11):1355-69. doi: 10.1007/s40273-019-00819-z.

15. Michalczyk J, Clay E, Pochopien M, Aballéa S. PRM123 - AN OVERVIEW OF OPEN-SOURCE MODELS IN HEALTH ECONOMICS. *Value in Health*. 2018;21:S377. doi: 10.1016/j.jval.2018.09.2243.
16. Wu EQ, Zhou Z-Y, Xie J, Metallo C, Thokala P. Transparency in Health Economic Modeling: Options, Issues and Potential Solutions. *PharmacoEconomics*. 2019;37(11):1349-54. doi: 10.1007/s40273-019-00842-0.
17. Cole A, Towse A. Legal Barriers to Better the Better Use of Health Data to Deliver Pharmaceutical Innovation. OHE Consulting Report. 2018.
18. Padula WV, McQueen RB, Pronovost PJ. Finding Resolution for the Responsible Transparency of Economic Models in Health and Medicine. *Med Care*. 2017;55(11):915-7. doi: 10.1097/mlr.0000000000000813.
19. Alarid-Escudero F, Krijkamp EM, Pechlivanoglou P, Jalal H, Kao S-YZ, Yang A, et al. A Need for Change! A Coding Framework for Improving Transparency in Decision Modeling. *PharmacoEconomics*. 2019;37(11):1329-39. doi: 10.1007/s40273-019-00837-x.
20. Initiative OS. The MIT License. Available from: <https://opensource.org/license/mit>. Published 2006. Accessed 2024 Apr 26.
21. ISPOR: The Professional Society for Health Economics and Outcomes Research. <https://www.ispor.org/> Accessed 11th June 2024.
22. Joshi A, Kale S, Chandel S, Pal D. Likert Scale: Explored and Explained. *British Journal of Applied Science & Technology*. 2015;7:396-403. doi: 10.9734/BJAST/2015/14975.
23. Team RC. R: A Language and Environment for Statistical Computing. 4.1.2 (2021-11-01) ed. Vienna, Austria: R Foundation for Statistical Computing; 2021.
24. ATLAS.ti, version 24. 24.1.0.30612 ed. Berlin: ATLAS.ti Scientific Software Development GmbH; 2024.
25. Husereau D, Drummond M, Augustovski F, de Bekker-Grob E, Briggs AH, Carswell C, et al. Consolidated Health Economic Evaluation Reporting Standards 2022 (CHEERS 2022) statement: updated reporting guidance for health economic evaluations. *BMC Medicine*. 2022;20(1):23. doi: 10.1186/s12916-021-02204-0.
26. DARTH: Decision Analysis in R for Technologies in Health. <https://darthworkgroup.com/> (2024). Accessed 10th June 2024.
27. Beno M, Figl K, Umbrich J, Polleres A. Perception of Key Barriers in Using and Publishing Open Data. *JeDEM - eJournal of eDemocracy and Open Government*. 2017;9(2):134 - 65. doi: 10.29379/jedem.v9i2.465.
28. Bitzer J, Schrettl W, Schröder PJH. Intrinsic motivation in open source software development. *Journal of Comparative Economics*. 2007;35(1):160-9. doi: <https://doi.org/10.1016/j.jce.2006.10.001>.

Bijlagen

Bijlage 1: Barrières en oplossingen geïdentificeerd vanuit de literatuur

Korte titel: Barrière	Beschrijving
Geen gebruik van open source software	Als men geen gebruik maakt van open source software is als het model gedeeld wordt het toch lastig om toegang te krijgen tot het model [14, 16].
Gebrek aan erkenning	Het model kan overgenomen of delen hiervan zonder dat hier referenties bij worden geplaatst [16].
Privacy/confidentiële data	Privacygevoelige of confidentiële data bijbehorende tot het model kan naar buiten komen [16, 17].
Tijd en moeite	Het kost tijd en moeite om modellen open source te publiceren doordat er annotaties bij geplaatst moeten worden [14, 16].
Risico op misbruik	Het model kan verkeerd geïnterpreteerd/gebruikt worden en daardoor kunnen er verkeerde conclusies getrokken worden [14, 16].
Geen interesse beleidsmakers	Beleidsmakers hebben misschien geen interesse in open source modellen wat de motivatie verlaagt voor modelontwikkelaars [11].
Reputatie/carrière risico's	Als er fouten in een open source model zitten kan dit tot reputatie of carrièreschade leiden [14].
Geen beloningssysteem	Er is geen beloningssysteem voor het open source publiceren [14, 16].
Geen afspraken onderhoud	Er zijn geen afspraken rondom het onderhoud van de modellen [11].
Korte titel: Oplossingen	Beschrijving
Kennis verbeteren modelontwikkelaars	Om modelontwikkelaars meer duidelijkheid te geven in hoe open source te publiceren en het verkeerd gebruik van modellen bij andere stakeholders te voorkomen kan de kennis van deze beide partijen worden verbeterd. Dit kan bijvoorbeeld met workshops maar ook tijdens de opleiding van deze stakeholders [18, 19].
Kennis verbeteren andere stakeholders	
Verplicht stellen licentie te gebruiken	Om gebruik van de modellen zonder erkenning tegen te gaan kan verplicht worden gesteld om licentie te gebruiken. Dit zodat duidelijk is wat de rechten en plichten zijn bij het gebruik van de modellen [18, 20].
Wetenschappelijke tijdschriften verplichten open source	Om ervoor te zorgen dat meer mensen open source gaan publiceren kan overwogen worden om dit verplicht te stellen vanuit wetenschappelijke tijdschriften en HTA-instellingen als er bijvoorbeeld een onderzoek bij hen wordt ingediend [11, 18].
HTA-instellingen verplichten open source	
Dummy data of het toevoegen van een ruis	Een oplossing om te voorkomen dat gevoelige of vertrouwelijke gegevens naar buiten komen kan zijn om de data te vervangen door dummy data of door een ruis aan de data toe te voegen [16].
Beloningssysteem	Modelontwikkelaars kunnen compensatie krijgen voor de tijd en moeite die zij steken in het open source maken van modellen door geld te ontvangen, door bijvoorbeeld erkenning te

	krijgen in de vorm van referenties of dat het open source publiceren meetelt bij carrière vorderingen [16].
--	---

Bijlage 2: Opzet enquête

Titel: Survey Open Source Barriers Health Economic Models And Potential Solutions

Datum van invullen respondent

Over the last few years, there has been discussions about making health economic models open source. In this survey, the aim is to understand which barriers are seen as the most important to address.

Background

With the advancement of medical treatments and due to the growing complexity of diseases (partly due to multimorbidity), there has been an increase in the complexity of health economic models. Alongside this complexity, the reliability of the evidence upon which these models are built has diminished. An increase in single-arm trials, crossover in trials, expanded treatment options, and the finer stratification of health states based on improved diagnoses have contributed to this challenge. As a result, the demand for the validity and transparency of these models has become higher.

A way to increase the transparency of health economic models is to publish them open source. Open source means that anyone can access the model if they want to. While many researchers and other stakeholders agree that publishing these models open source can increase their transparency [1], the actual publication of such models remains low. Multiple barriers to open source publishing of health economic models have been identified but it remains unclear how each stakeholder group individually looks at these barriers.

The survey comprises two distinct sections. The first section contains questions about the relevance and importance of barriers to open source health economic models identified in the literature. The second part focuses on solutions to overcome these barriers. After these two parts, you can leave your email if you're open to a follow-up interview to discuss your answers in more depth.

Not every stakeholder group is taken into account in this survey. The focus is on researchers from academic institutions, employees from pharmaceutical companies, employees from consultancy agencies and employees from governmental institutions. The reason for this is that these groups are mostly involved in the development and evaluation of these models.

On the next page, you will see the informed consent form.

[1] Pouwels XGLV, Sampson CJ, Arnold RJG; Open Source Models Special Interest Group. Opportunities and Barriers to the Development and Use of Open Source Health Economic Models: A Survey. Value Health. 2022 Apr;25(4):473-479. doi: 10.1016/j.jval.2021.10.001. Erratum in: Value Health. 2023 Jul;26(7):1135. PMID: 35365297.

Informed consent

This survey is completely voluntary. If you start the survey, you can always change your mind and stop at any time.

What is the purpose of this study?

The goal of this study is to understand what the most important barriers are hindering the development of open-source health economic models. Next to that, the goal is to understand whether there is a difference between how different stakeholder groups look at those barriers. The stakeholder groups involved in this study are researchers from academic institutions, employees from pharmaceutical companies, employees from consultancy agencies and employees from governmental institutions.

What will I do?

This survey will first ask a few questions about your work environment. Next to that, a few questions will be asked concerning the barriers followed by a few questions about solutions for these barriers. Here you can comment on what you think of these solutions but also get the opportunity to suggest your own solution.

How long will it take?

The survey will take about 10-20 minutes.

Confidentiality and Data Security

At the end of the survey, you can choose to leave your email address if you're open to a follow-up interview, but this is completely voluntary. The data will only be shared with the research team, and it will be collected on the OneDrive of the University of Twente.

Your data won't be shared for any future research. The results will be published as grouped data with the possibility of

some anonymous quotes. The results will be published in the University of Twente Theses Repository and possibly in a journal article.

How long will it be kept?

The data will be kept until after the research has been completed, which will be until July.

Questions about the research, complaints, or problems:

If you have any questions, complaints, or problems with the research you can contact Demi Veldman (d.j.m.veldman@student.utwente.nl). If you have questions about your rights as a research participant, or wish to obtain information, ask questions, or discuss any concerns about this study with someone other than the researcher, please contact the Secretary of the Ethics Committee/domain Humanities & Social Sciences of the Faculty of Behavioural, Management and Social Sciences at the University of Twente by ethicscommittee-hss@utwente.nl.

1	I have read the consent form above and give consent that my data can be used for this study.*		Yes
2	I give consent that my anonymized data can be stored in an online repository.*	Yes	No
3	I agree that my data can be used for future research.*	Yes	No

*= verplicht te beantwoorden

Personal Characteristics

4	Please indicate which category describes your working environment best:			
	Researcher at an academic institution	Employee pharmaceutical company	Employee consultancy agency	Employee government institution
5	Do you primarily develop or evaluate models?			
	Develop	Evaluate	Other...	
6	How many years of work experience do you have in the field of health economics?			
	0-2	2-5	5-10	10+

Barriers

While making health economic models open source has a lot of advantages such as increased transparency, the number of models that have been published open source remains limited. In this section, we ask you about the relevance and importance of barriers to developing open-source health economic models.

7	Publishing a model open source means that everyone who wants to can have access to the model [2]. To what extent do you think that this has an added value in health economics?					
	[2] Wu, E.Q., Zhou, ZY., Xie, J. <i>et al.</i> Transparency in Health Economic Modeling: Options, Issues and Potential Solutions. <i>PharmacoEconomics</i> 37, 1349–1354 (2019). https://doi.org/10.1007/s40273-019-00842-0					
	Highly valuable	Somewhat valuable	Slightly valuable		Not valuable at all	
8	Please indicate the relevance of each barrier:					
		Highly irrelevant	Likely to be irrelevant	Neutral	Likely to be relevant	Highly relevant
	Model developers do not always develop models using open source software.					
	Models can be reused without crediting the original maker.					
	Privacy-sensitive and confidential data informing these models may become available.					
	It takes time and effort to make the models open source.					
	The models might be used incorrectly by others.					
	Decision-makers may not be interested in the development of open source models.					
	Potential damage to the developers's reputation may arise due to identified mistakes in one's model for instance.					
	There is no reward system for publishing open source models.					
	There is no agreement about who is responsible for the maintenance of published open source models.					

9	Please rank the identified barriers in order of importance, starting with the most important barrier to address on top and ending with the least important at the bottom. You can drag the items to put them in order
	<i>Alle barriers die bij vraag 8 staan.</i>
10	Can you think of any other barriers not already mentioned above? If so, could you please elaborate:
	<i>Open text bar.</i>
11	Which barriers should be removed for you to develop and publish open source health economic models?
	<i>Alle barriers die bij vraag 8 staan.</i>

Solutions					
In this section, we're going to discuss some solutions for the previously mentioned barriers.					
12	Solutions: For every solution, please indicate to which degree you agree it's an effective solution.				
	Strongly disagree	Disagree	Neutral	Agree	Strongly agree
	Solution 1: improve knowledge about making health economic models open source for model developers.				
	Solution 2: improve the knowledge for other stakeholders in how they could use health economic models. This solution aims to solve the barrier of misuse but also about decision-makers not being interested.				
	Solution 3: the use of licensing frameworks (for example the MIT or GLP-3) should be made mandatory. This solution aims to solve the barrier of model reuse without credit.				
	Solution 4: using dummy data or adding a random error to the original data. This solution aims to solve the barrier relating to privacy-sensitive and confidential data.				
	Solution 5: publishing open source models should be mandatory for submissions of evidence dossier to HTA agencies.				
	Solution 6: publishing open source models should be mandatory for submission to scientific journals.				
	Solution 7: having a reward system in the form of money or recognition like citations for developing and publishing open source health economic models. This solution aims to solve the barrier of time and effort by compensating the model developer.				
13	Can you explain your answer per solution?				
	<i>Open text bar</i>				
14	Who do you think should be responsible for the implementation of solution 1: improve knowledge about making health economic models open source for model developers.				
	<i>If you think more stakeholders should be responsible for one solution, please put down the most important one in your opinion.</i>				
	Researchers (and their faculty)				
	Pharmaceutical companies				
	Consultancy agencies				
	HTA agencies (NICE for example)				
	The government				
	Publishers of scientific journals				
	Professional organisations like ISPOR				
	Others...				
	Vraag 15 t/m 20: de rest van de oplossingen op dezelfde manier gesteld.				
21	Can you think of other solutions not mentioned in this section? If you can, please also indicate who should be responsible for the implementation of it:				
	<i>Open text bar.</i>				
22	Are you open to the possibility of an interview where we can discuss these barriers and solutions in more detail? If so, please provide your email address below so I can contact you about the possibilities. Your email address will not be shared with anyone else besides the research team.				
	<i>Open text bar.</i>				

Thank you!

Thank you for filling out this survey. Are you curious about the results? Afterwards, this study will be published in the University of Twente database of bachelor theses: <https://essay.utwente.nl/view/programme/56553.html>. It will be posted in the database somewhere in July.

Bijlage 3: Interviewschema

Introduction

A few weeks ago, you completed the survey I sent you and indicated that you were willing to participate in a follow-up interview. In this follow-up interview, we will delve deeper into the topics previously discussed in the survey, while possibly also delving into other topics. This to gather a more in depth understanding of it. The interview will take about 20 minutes.

Before starting I would like to ask for permission that I can record this interview. This is so that afterwards I can transcribe the interview and use it for my thesis. The recording will be securely stored on the University of Twente's OneDrive. After transcription, the recording will be deleted. All information shared during the interview will be processed and reported anonymously. Only me and the research team will have access to it. Do you permit me to record the interview? At anytime during this interview, you can choose to stop.

Do you have any questions or remarks before we start?

- Introduction: bachelor student, bachelor thesis and topic.
- Who are they: job function. What is the relation to health economic modelling?

Questions per topic

How valuable do you view open source models? What do you think are the advantages and what are the disadvantages?

Barriers:

- Which did they indicate as highly relevant and why?
- Which did they indicate as highly irrelevant or likely to be irrelevant and why?

Ranking:

- Which did they see as most important? (*Can be combined with the questions above*)
- Which are seen as less important to address? (*Can be combined with the questions above*)

Open question: are there more barriers not mentioned?

- If answered: ask to explain the barriers given and potentially if they can think of more. How important are these barriers?
- If not answered: possible discuss some of the barriers mentioned by others or ask if they can think of any other barriers now. (*Depends on the time if this is possible*)

Which barriers to remove

- Discuss why these barriers are needed to remove.
- If they already publish open source, ask if these barriers are still a problem to them and which barriers they might want to see be removed soon.
- If they indicated more barriers are needed: ask which barriers?

Solution:

Which solutions did they indicate to be highly relevant?

- What do you think of this solution? Who should be responsible for this solution?

Which solutions did they indicate to be highly irrelevant or likely to be irrelevant?

- Why wouldn't you say this relevant? Does this not tackle the problem or is the problem itself not relevant?

Open question: new solutions

- If answered: can you explain your solution any further?
- *If there is time left*: What do you think of this solution?

Is there anything else you want to add?

Ending:

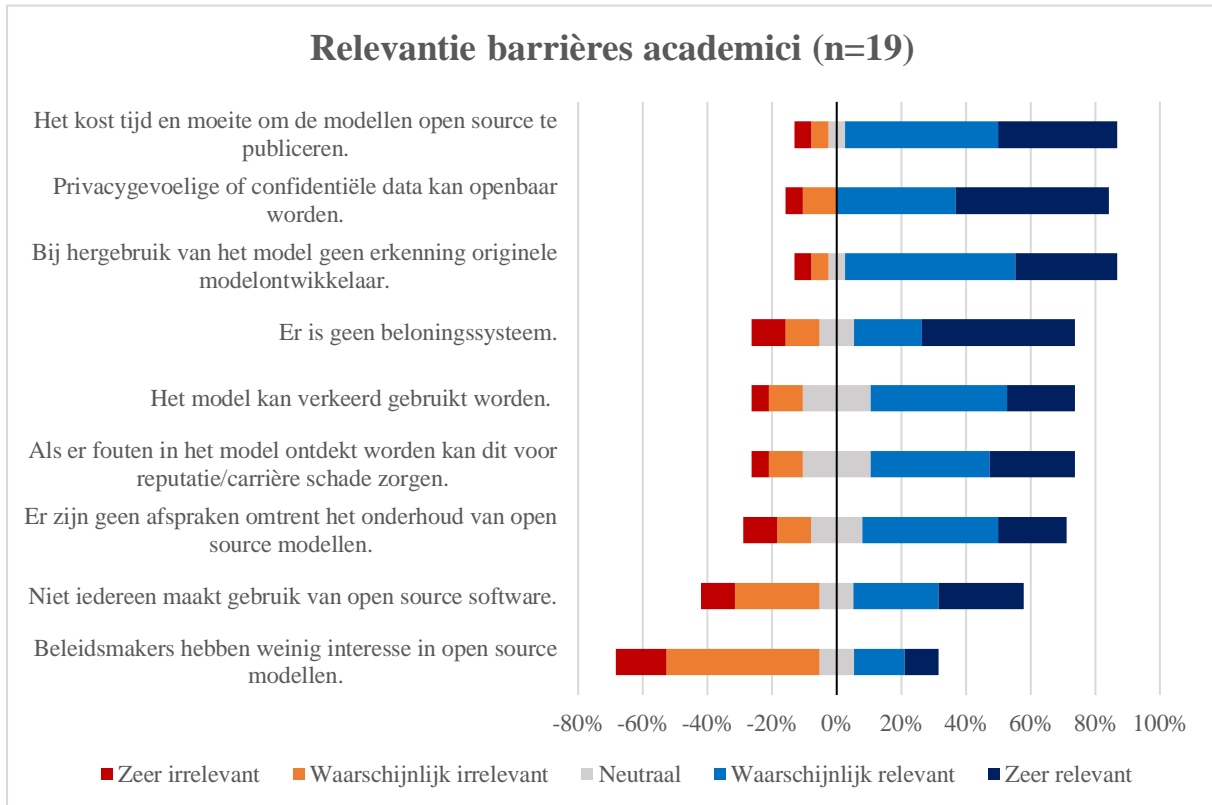
This was the interview. Thank you for participating and for helping me out. If you are interested in the thesis, I can send you an email afterwards with the summary so that you can look at it. Would you mind member checking this interview after I have transcribed it?

Bijlage 4: Codes interviews.

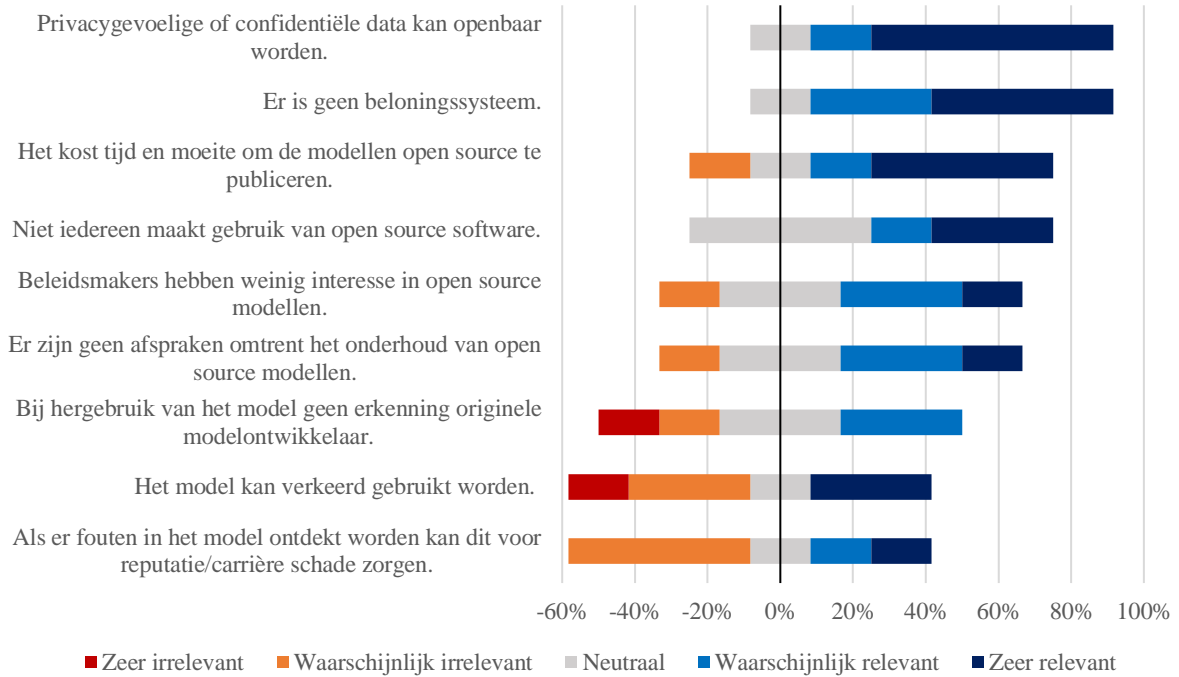
Codegroep	Code	Door hoeveel respondenten benoemd
Barrières	Accuraat model	1
	Copyright	1
	Dataproblemen	1
	Eigenaar model	4
	Erkenning	3
	Fouten in modellen	3
	Geen beloningssysteem	3
	interpretatie van de data	2
	Onderhoud modellen	1
	Privacy issues	6
	rangschikking	1
	Reputatie	1
	Technische skills	1
	Tijd en moeite	6
Verkeerd gebruik	2	
Nieuwe barrières	Geen licentie op modellen	1
	Investering	1
Oplossingen	Dummy data	5
	Educatie	3
	licentie	2
	Payment model	2
	beloning	5
	Ruis toevoegen	1
	Standaardiseren van software	4
	Verplicht open source	4
Nieuwe oplossingen	Automatisering	1
	Doelgroep open source	1
	Los zien van elkaar	1
	Payment model	2
	Prikkel/beloning	6
	Richtlijnen creëren	1
	Toolkit	2
Waarde open source modellen	Educatie	3
	Voordelen open source modellen	7

Stakeholders	Academici	4
	Consultancy	1
	De algemene bevolking	2
	Farmaceutische bedrijven	4
	HTA	2
	overheid	2
	Praktijk modellen vs. academici modellen	1

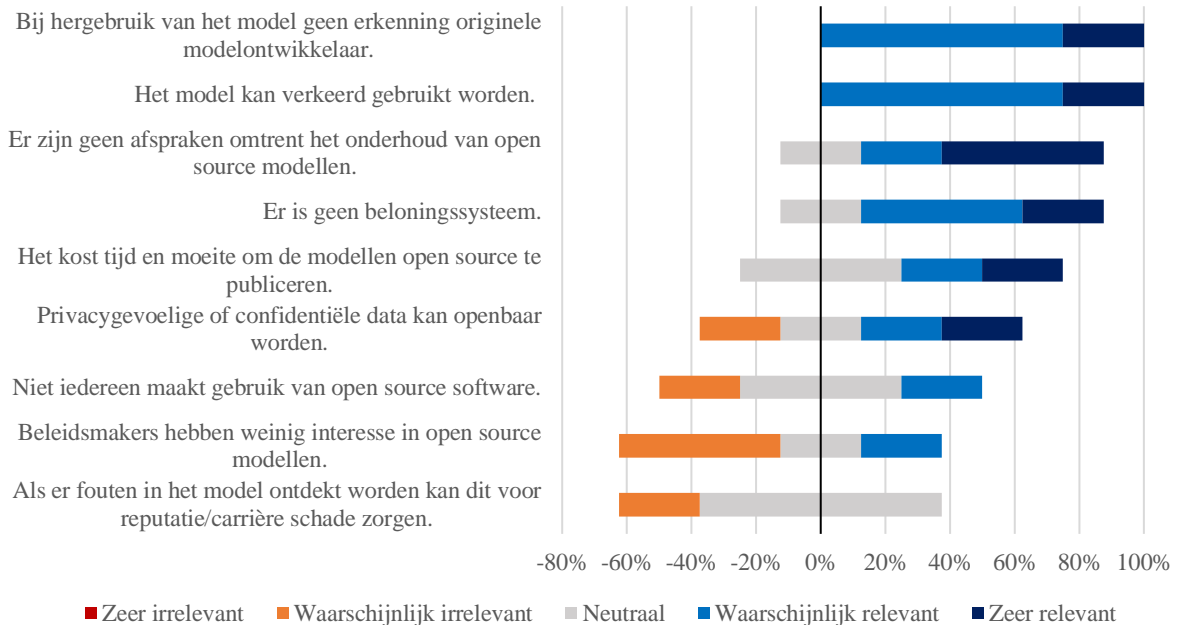
Bijlage 5: Relevantie barrières verschillende stakeholdergroepen



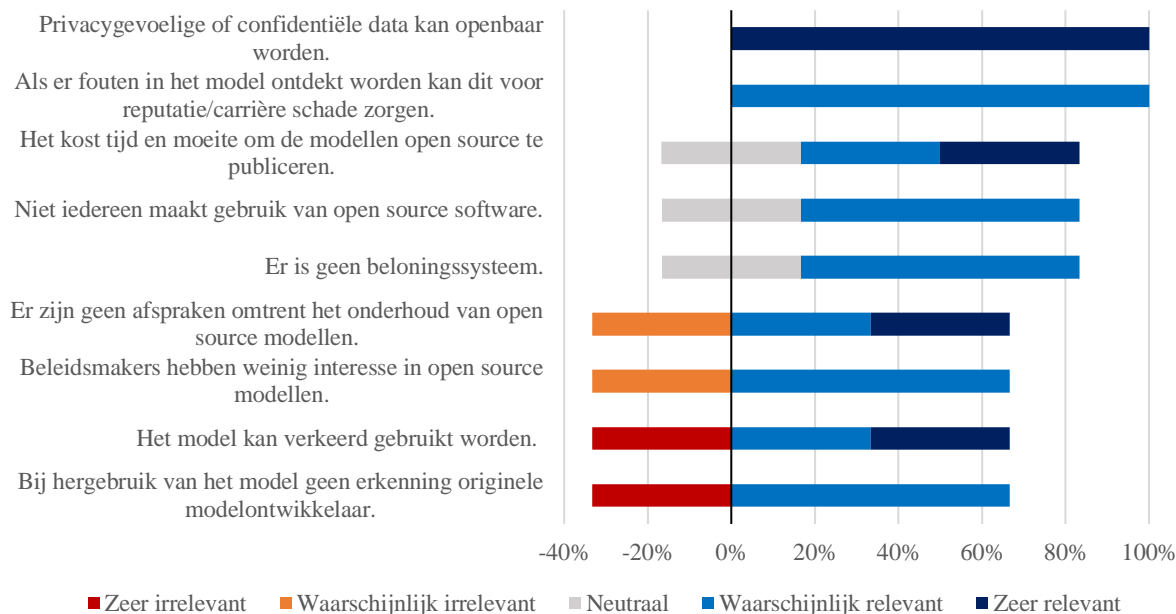
Relevantie barrières consultants (n=6)



Relevantie barrières medewerkers overheidsinstanties (n=4)



Relevantie barrières medewerkers farmaceutische bedrijven (n=3)



Bijlage 6: Kort samengevat nog niet benoemde barrières uit de enquête

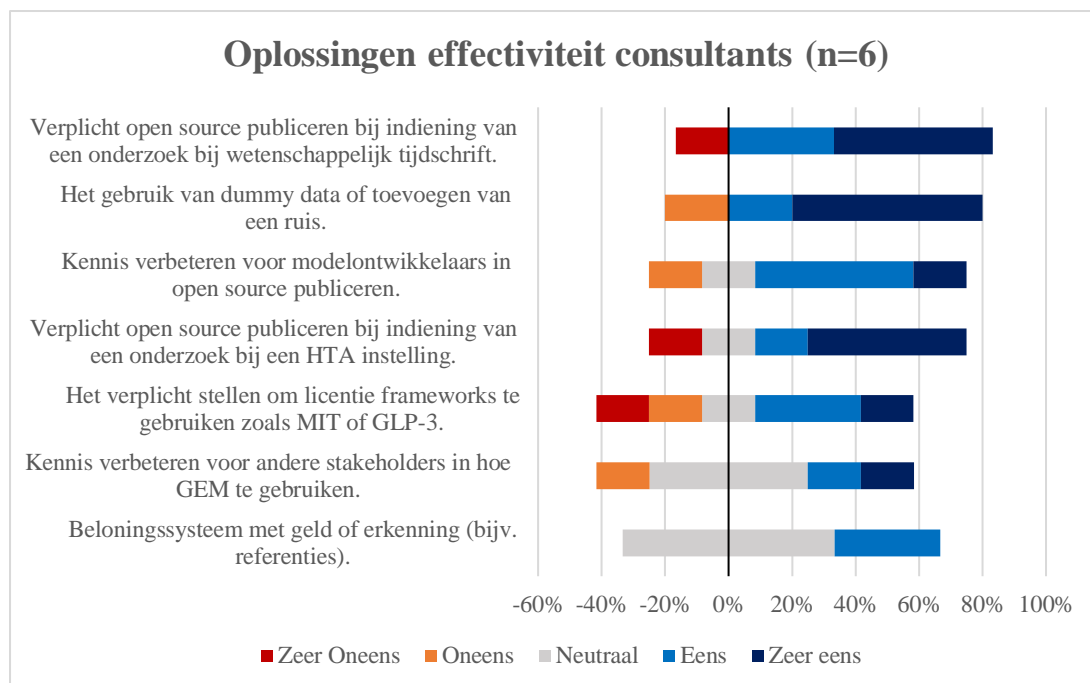
Barrière	Opmerkingen
Veel open source modellen hebben geen licentie.	<i>Is geen barrière op zichzelf is eerder een huidig probleem met al gepubliceerde modellen.</i>
Open source modellen zullen niet compleet zijn voor farmaceutische bedrijven.	
Modellen zijn te specifiek.	n=2
Sommige modellen zijn een investering en die zullen dus niet 'zomaar' open source worden gemaakt.	
Technische vaardigheden om open source te gaan publiceren ontbreken.	n=2
Men is bang dat hun manier van coderen niet 'goed' genoeg is.	
Bedrijven willen niet dat men hun modellen kan beoordelen of kan kopiëren.	
Gegevens kunnen bekend worden.	Is een barrière die al in de enquête zat.
Men denkt eigenaar te zijn van het model of de gegevens hierin dus wil dit niet weggeven.	n=2

Het kost tijd en moeite om een handleiding of achtergrond documenten te leveren bij het model.	Is een barrière die al in de enquête zat. n=2
Valorisatie wordt lastiger indien het model open source gepubliceerd wordt.	

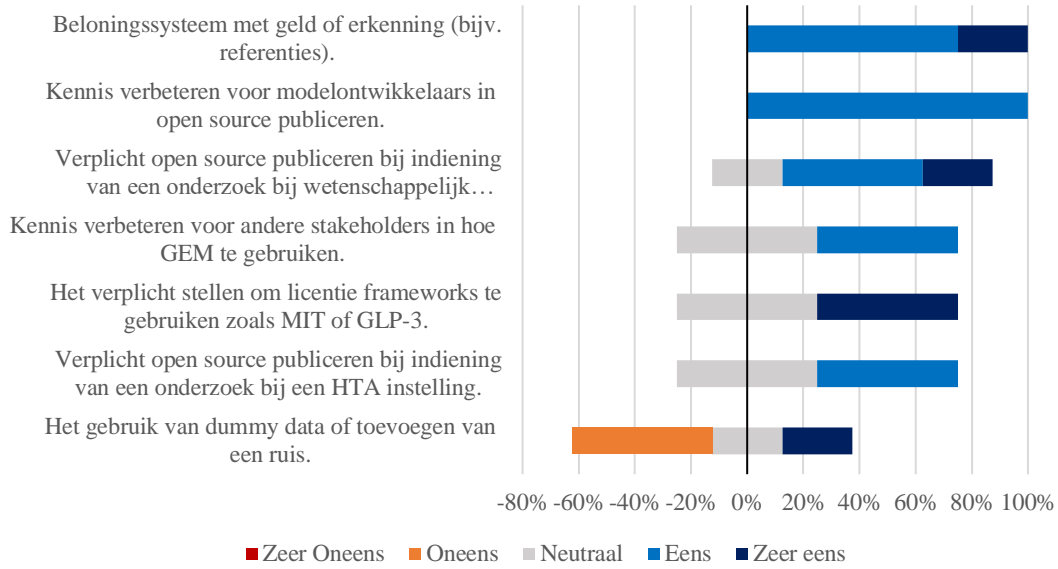
Bijlage 7: Welke barrières er weg moeten worden genomen

Barrière	% (N=31)
Privacygevoelige data kunnen openbaar worden	48,3
Het kost tijd en moeite om de modellen open source te publiceren.	44,8
Bij hergebruik van het model geen erkenning.	34,5
Er is geen beloningssysteem.	27,6
Het model kan verkeerd gebruikt worden.	24,1
Er zijn afspraken omtrent het onderhoud van open source modellen.	24,1
Publiceer al open source.	24,1
Als er fouten in het model ontdekt worden kan dit voor reputatie/carrière zorgen.	20,7
Geen interesse beleidsmakers in open source modellen.	13,8
Niet iedereen maakt gebruik van open source software.	10,3
Ontwikkeld geen modellen.	10,3
Andere barrières moeten weg worden genomen.	3,4
Is niet bereid om open source te gaan publiceren.	3,4

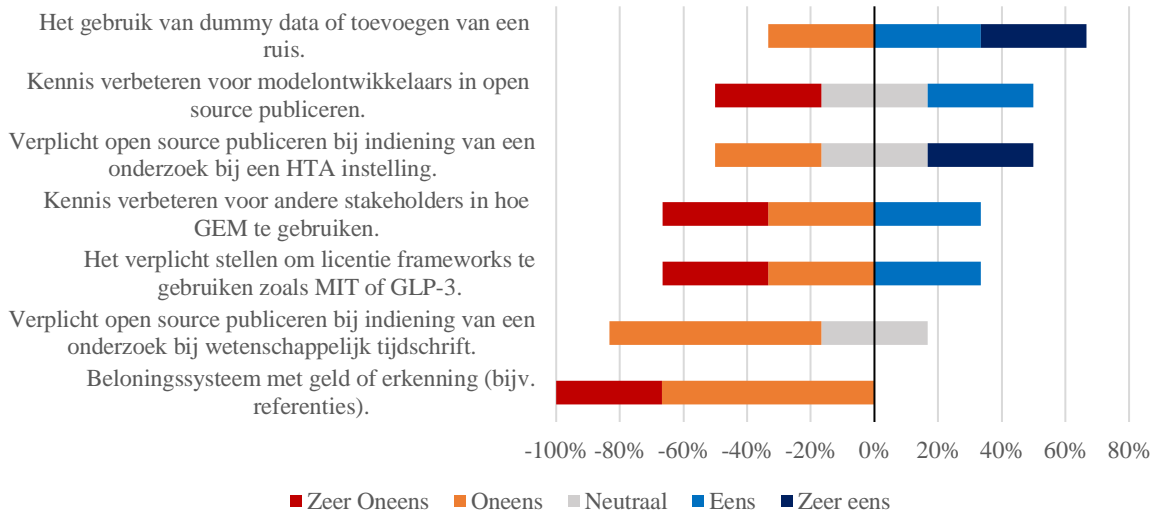
Bijlage 8: Aangegeven effectiviteit oplossingen per stakeholdergroep



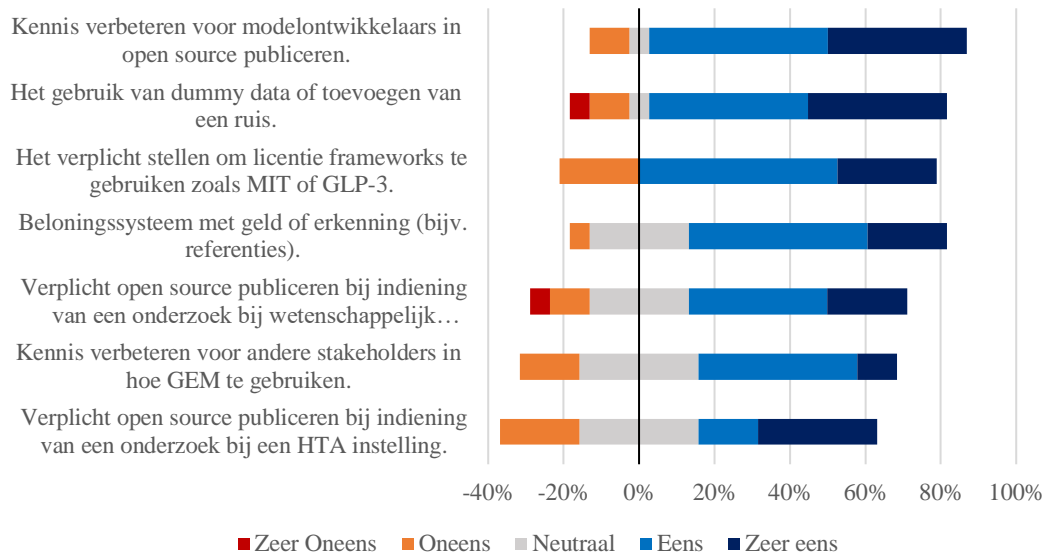
Oplossingen effectiviteit overheidsinstanties (n=4)



Oplossingen effectiviteit medewerkers farmaceutische bedrijven (n=3)



Oplossingen effectiviteit academici (n=19)



Bijlage 9: Uitleg over gegeven effectiviteit bij de oplossingen

Oplossing (N=14)	Positief	Gemixt	Negatief
Kennis verbeteren voor model ontwikkelaars in open source publiceren. (n=8)	(n=6, 75%) Behulpzaam (n=3).		(n=2, 25%) Kennis is geen probleem (n=1). Iets dergelijks bestaat al (GitHub) (n=1).
Kennis verbeteren voor andere stakeholder in hoe GEM te gebruiken. (n=7)	(n=4, 57%) Behulpzaam (n=2).		(n=3, 43%) Kennis is geen probleem (n=1) Vergezochte oplossing (n=1) Iets dergelijks bestaat al (GitHub) (n=1).
Het verplicht stellen licenties te gebruiken zoals MIT of GLP-3. (n=6)	(n=4, 67%) Haalt de barrière weg (n=1) Standaardisatie (n=1)		(n=2, 33%) Niet de middelen om aan te klagen bij misbruik (n=1) Open source licenties bestaan al (n=1)
Het gebruik van dummy data of toevoegen van een ruis. (n=8)	(n=6, 75%) Enige optie (n=1) Synthetische data zijn wel beter (n=2)		(n=2, 25%) Meer dan alleen de data is confidencieel (n=1) Lost de dataproblemen niet op (n=1)
Verplicht open source publiceren bij indiening van een onderzoek bij een HTA-instelling. (n=10)	(n=3, 30%) Maakt het verschil voor farmaceutische bedrijven (n=1) Compensatie krijgen voor tijd en moeite is makkelijker (n=2)	(n=2, 20%) Alleen modellen met interventies voor de algemene bevolking (n=1) Interne modellen ontbreken (n=1)	(n=5, 50%) Confidentiële gegevens zoals prijsafspraken (n=2). Verdiene geld met de modellen (consultancy) (n=1) Het model kan misbruikt worden (n=1).
Verplicht open source publiceren bij indiening van een onderzoek bij een wetenschappelijk tijdschrift. (n=9)	(n=2, 22%) Compensatie krijgen voor tijd en moeite is makkelijker (n=2).	(n=7, 78%) Privacy issues dienen eerst opgelost te worden (n=1). Bieden niet dezelfde functies als modellen in het bedrijfsleven (n=2).	

		Farma publiceert weinig in journals (n=1). Niet elke journal zou dit verplicht moeten stellen, geef de keuze (n=2).	
Beloningssysteem met geld of erkenning (bijv. referenties). (n=10)	(n=4, 40%) Compensatie (n=1) 'Funding scheme' (n=1).	(n=2, 20%) Werkt voor academici maar niet voor het bedrijfsleven (n=2).	(n=4, 40%) Werkt niet voor het bedrijfsleven (n=1) Niet realistisch (n=1) Academici publiceren toch wel voor hun carrière (n=1) Het bedrijf is eigenaar van het model niet het individu (n=1).

Bijlage 10: In hoeverre de verschillende instanties als verantwoordelijk worden gezien voor de implementatie van elke oplossing

N=32	HTA instellingen	Professionele organisaties	Academici	Farmaceutische bedrijven	Uitgevers	Overheidsinstanties	Consultantie bedrijven	Anders
Kennis verbeteren voor model-ontwikkelaars in open source publiceren.	16%	26%	<u>45%</u>	0%	3%	3%	0%	6%
Kennis verbeteren voor andere stakeholders in hoe GEM te gebruiken.	21%	28%	<u>34%</u>	3%	0%	0%	7%	7%
Verplicht stellen om licenties te gebruiken zoals MIT.	<u>33%</u>	7%	23%	0%	20%	13%	0%	3%
Gebruik van dummy data of toevoegen van een ruis.	10%	3%	<u>47%</u>	13%	10%	7%	3%	7%
Verplicht open source publiceren bij indienen onderzoek bij een HTA-instelling.	<u>84%</u>	0%	0%	3%	0%	13%	0%	0%
Verplicht open source publiceren bij indiening onderzoek bij wetenschappelijk tijdschrift.	0%	0%	6%	0%	<u>90%</u>	0%	0%	3%
Beloningssysteem met geld of erkenning (bijv. referenties)	7%	18%	14%	4%	<u>32%</u>	7%	4%	14%
Dikgedrukt en onderstreept: de stakeholder die bij de desbetreffende oplossing het vaakst is benoemd.								