

Livskvalitet til pasienter med Juvenil Dermatomyositt



Anita Tollisen

Seksjon for sykepleievitenskap
Det medisinske fakultet

UNIVERSITETET I OSLO

Masteroppgave

12. januar 2010

INNHALDSFORTEGNELSE FOR DEN SAMLEDE OPPGAVEN:

ARTIKKELEN : QUALITY OF LIFE IN ADULTS WITH JUVENILE DERMATOMYOSITIS

1	Introduction.....	1
2	Background.....	1
3	Methods.....	3
3.1	Design.....	3
3.2	Population.....	3
3.3	Measures.....	4
3.4	Demographic Characteristics.....	5
3.5	Norwegian version of Quality of Life Scale (QoLS-N).....	5
3.6	Medical Outcomes Study 36-item Short Form (SF-36).....	6
3.7	Disease Related Characteristics.....	6
3.8	Statistics.....	7
4	Results.....	7
4.1	Demographic Characteristics.....	7
4.2	Education, Occupation and Income.....	8
4.3	Clinical Characteristics.....	9
4.4	Health related and global quality of life in patients with JDM versus healthy controls.....	10
4.5	Relationship between GQoL and HRQoL and disease activity and Physical disabilities.....	12
5	Discussions.....	13
6	Conclusion.....	17
7	Relevance to Clinical Practice.....	18
8	Reference List.....	19
9	Forfatterveileder til Journal of Clinical Nursing	Vedlegg 1

REFLEKSJONSOPPGAVEN:

MÅLING AV LIVSKVALITET – EN VURDERING AV RESULTATETS GYLDIGHET

1	Innledning.....	24
1.1	Bakgrunn for studien.....	25
1.2	Presentasjon av funn fra studien.....	26
1.3	Studiens relevans for sykepleiefaget.....	26
2	Begrepene livskvalitet og helse relatert livskvalitet.....	27
3	Valg av metode og instrumenter.....	29
3.1	Instrumentene Quality of Life Scale-N og Short Form 36.....	29
4	Instrumentenes reliabilitet og validitet.....	30
4.1	Instrumentets reliabilitet.....	30
4.1.1	Test-retest.....	30
4.1.2	Intern konsistens.....	31

4.2	Forhold ved denne studien som kan ha innvirkning på dataenes reliabilitet.....	32
4.3	Instrumentets validitet.....	34
4.3.1	Innholdsvaliditet.....	35
4.3.2	Begrepsvaliditet.....	35
4.4	Forhold ved denne studien som kan ha innvirkning på dataenes validitet.....	36
4.4.1	Dataenes innholdvaliditet.....	36
4.4.2	Dataenes begrepsvaliditet.....	38
5	Konklusjon.....	42
6	Referanseliste.....	43
7	Vedlegg	
	Demografisk spørreskjema	Vedlegg 2
	Spørreskjema Quality of Life Scale –N	Vedlegg 3
	Spørreskjema Short Form 36	Vedlegg 4
	Søknad til REK	Vedlegg 5
	Svar på søknad fra REK	Vedlegg 6
	Søknad til NSD	Vedlegg 7
	Svar på søknad fra NSD	Vedlegg 8
	Brev til pasientene	Vedlegg 9
	Brev til kontrollgruppen	Vedlegg 10

OVERSIKT OVER TABELLER I STUDIEN:

Table 1.	Demographic Characteristics of patients and controls	8
Table 2.	Clinical Characteristics of Patients	9
Table 3.	HRQoL measured by SF-36 in adults with JDM and controls	10
Table 4.	Median and range for QoLS-N items for JDM patients and controls	11
Table 5.	Correlation between SF-36 and QoLS-N in adults with JDM and age and sex matched healthy controls	12
Table 6.	Correlation between SF-36 subscores and DAS and HAQ scores	12

OVERSIKT OVER FIGURER I STUDIEN

Figur 1.	Operasjonalisering av begrepene i studien	39
----------	---	----

Quality of life in adults with Juvenile Dermatomyositis

Introduction

Juvenile Dermatomyositis (JDM) is a rare chronic inflammatory disease characterised by inflammation of muscles, skin and other organs. Although a rare disease, it is still the most common tissue disease in childhood. Before the introduction of corticosteroid in the early 1960's the mortality rate for patients with JDM was approximately 30%, and many survivors were left with permanent impairment (Bitnum, Daeschner, Travis, Dodge and Hopps, 1964). The prognosis of JDM has improved due to improved health care and medication. Nevertheless, a number of patients still develop irreversible impairment such as muscular, skeletal and cutaneous damage, which may affect their health status (Sanner, Gran, Sjaastad and Flatø, 2009).

A major goal in the treatment of children with JDM is to ensure that the patient can grow up to have the best possible life. Patient perception about their global quality of life (GQoL) and health related quality of life (HRQoL) can provide important information about the impact of a disease on patient life. Such information can guide nursing personnel in the care of future patients with JDM, and enhance their ability to promote quality of life in such patients.

Background

Few studies have focused on quality of life outcomes within JDM. A previous study (Apaz et al, 2009) found children with JDM to have impairment in their HRQoL, particularly in physical domains. Huber et al (2000) found that JDM patients had favourable long-term physical functional and educational/vocational outcomes. The Huber (2000) study

gathered information by means of patient interview in person or by phone without a control group. In order to obtain more comparative information about long-term outcome in quality of life, this present study will have a case-control design and compare patients with healthy controls.

Educational achievement and vocational activity are two areas which can influence quality of life. Other studies of childhood rheumatic diseases have found patients to be at risk of unsuccessful social development with a consequent impact on educational and vocational achievement (Ebenhardt, Larsson and Nived, 1993; Archenholtz, Nordborg and Bremell, 2001; Foster, Marshall, Myers, Dunkley and Griffiths, 2003). In JDM patients little knowledge exists of long-term outcome in such areas (Huber and Feldman, 2005), a knowledge gap which this paper aims to address.

The relationship between health and quality of life is complex. Perceived health and quality of life are not necessarily correlated. In chronic illness perceived health can have an influence on patients' perceived quality of life. This necessitates the use of GQoL and HRQoL measures in this study. No consensus exists on the definition of quality of life, with several definitions in current use. GQoL will in this study be defined as "a person's sense of well-being that stems from satisfaction or dissatisfaction with areas of life that are important to him or her", a definition proposed by Ferrans (1990). Health is often included as an important aspect of quality of life and the term HRQoL has been used to describe aspects of the individual's quality of life that relate to satisfaction with health. The concept of HRQoL has been defined as "a state of complete physical, mental and social well-being and not merely absence of disease or infirmity" by World Health Organization (1947), and this definition will be adopted in this study.

Information regarding long-term outcomes in quality of life (QoL) and education/vocational achievement is limited for patients with JDM. The primary objective of this study is to collect information regarding these issues from the perspective of the adult patient with JDM. The following research questions are raised in this respect:

- Does the adult patient's QoL differ from the general healthy population?
- Is there a relationship between HRQoL and GQoL in adult patients and the controls?
- Is there a relationship between disease activity and global and health related quality of life in adults with JDM?
- Do demographic characteristics such as education, employment and income differ between adult with JDM and the general healthy population?

Methods

Design

In this study a case-control design, including a questionnaire, was undertaken. Approval was obtained from the Regional Ethics Committee for Medical Research and the Norwegian Directorate of Health. The study is part of a larger study at Oslo University Hospital (OUH) Rikshospitalet, to investigate and measure outcomes of patients diagnosed with JDM between 1970 and 2005 (Sanner et al, 2009).

Population

Patients diagnosed with JDM between January 1970 and June 2005 in Norway were identified by electronic and manual search in OUH medical records. This hospital is the referral centre for children with rheumatic diseases in Norway. In addition it has the responsibility for the care of children with rheumatic diseases in a region comprising 55%

of the Norwegian population (total population 4.7 million). Departments of Paediatrics and Rheumatology in the other regional hospitals in Norway were also asked to identify and refer any JDM patients treated during the last ten years. All identified patients were located through the Norwegian population register.

All patients in the cohort had a definite or probable diagnosis of JDM when applying the Bohan /Peter criteria retrospectively (Boban and Peter, 1975; Sanner et al, 2009), and had a disease onset before 18 years of age and minimum disease duration of 24 months from onset. Patients were informed of the purpose of the study by letter. Of the 44 patients who met the enrolment criteria, 4 had died and one declined inclusion. The study group therefore comprised 39 patients.

The controls were age matched to the patients as of the date of examination of the patients, and sex matched. They were selected randomly from the Norwegian population register. Control recruitment was achieved by means of information about the purpose of the study with an invitation to participate being sent by post to 146 individuals. This resulted in 46 (32 %) accepting the invitation to participate. Controls with a chronic illness were excluded from the study, and 3 such controls were excluded. For 4 cases there were 2 controls. In these cases, the first control to be examined was selected. Informed consent was obtained from patients and controls in accordance to the Declaration of Helsinki.

Measures

A questionnaire was specifically developed for the study in order to obtain demographic information. GQoL was measured using the Norwegian version of the Quality of Life Scale (QoLS-N). This measure meets Ferrans' definition by including different areas which could be of importance to the respondent. HRQoL was measured by using the

Medical Outcome Study 36-item Short Form (SF-36), a questionnaire which broadly corresponds to the WHO definition by including several areas that could influence HRQoL. This questionnaire was answered by the patients at the OUH between November 2005 and May 2008, and by the control group between December 2007 and May 2009.

Demographic Characteristics

Demographic information such as sex, age, marital status, highest level of formal education, employment status and annual income were obtained from a multiple choice questionnaire. Many of the questions had an additional open response field, in case the respondent did not find a suitable alternative. These data were all categorical.

Norwegian version of Quality of Life Scale (QoLS-N)

The QoLS is a 16-item, domain-specific instrument which explores factors such as physical and material well-being, relationship with other people, participation in social, community and civic activities, personal development and recreation. Patients are asked to rate their present level of satisfaction on a seven point scale. The scale is scored by adding up the score on each item to obtain a total score. The score can range from 16 – 112 with a high score indicating a better quality of life (Flanagan, 1978; Burckhardt, Woods, Schultz and Ziebarth, 1989; Burckhardt, Anderson, Archenholtz, and Hägg, 2003). This instrument has never previously been used to measure quality of life of patients with JDM. It has however been used on patients with other rheumatic diseases (Burckhardt, Archenholtz and Bjelle, 1993; Archenholtz, Burckhardt and Sagsten, 1999). QoLS has been translated into Norwegian (QoLS-N) and previous studies have shown satisfactory reliability and validity (Wahl, Burckhardt, Wiklund and Hanestad, 1998; Wahl, Rustøen, Hanestad, Lerdal and Moum, 2004).

Medical Outcomes Study 36-item Short Form (SF-36)

SF-36 consists of 36 questions on extensive areas of health covering general health, physical functioning, mental health, physical role limitations, emotional role limitations, vitality, social functioning and bodily pain. In addition it requests any changes in health during the past year. The questions are used to score 8 subscales. The score from each subscale ranges from 0 - 100, with a higher score indicating a higher health related quality of life (Ware, Kosinski and Gandek, 2005). The score from each subscale can be assigned to a physical component summary (PCS) and a mental component summary (MCS). This instrument is used extensively in rheumatology, and has been tested thoroughly for psychometric properties in several countries, including Norway (Loge, Kaasa, Hjermland and Kvien, 1998). It is recommended by International Myositis Outcome Assessment Collaborative Study Group for use as an outcome measure for patients with JDM (Miller et al, 2001).

Disease Related Characteristics

Disease related characteristics were obtained from the main study (Sanner et.al, 2009) and included age at diagnosis, disease duration, disease activity measured by Disease Activity Score (DAS) and physical disabilities measured by Health Assessment Questionnaire (HAQ).

DAS is a 20 point scale used to quantify disease presence and progression over time by a rheumatologist. It comprises 2 subscales reflecting skin involvement and muscle weakness. The subscale reflecting skin involvement is rated from 0 - 9 and that of muscle weakness rated from 0 - 11. The total score is rated from 0 - 20 with a score of 0 indicating no skin involvement or muscle weakness. (Bode, Klein-Gitelman, Miller, Lechman and Pachman, 2003)

HAQ comprises 8 sections: dressing, rising, eating, walking, hygiene, reach, grip and activities, each containing two or three questions. The score ranges from 0 (no difficulty) to 3 (unable to do). The score from each section is the worst (i.e.highest) score from any question within the section. The final score is the average of the 8 sections with a score of 0 indicating no physical disability (Fries, Spitz, Kraines and Holman, 1980).

Statistics

Statistical analyses were performed using Statistical Package for Social Sciences (SPSS) Version 16. Descriptive statistics included absolute frequencies and percentage for categorised data, and mean, median, range and standard deviation (SD) for continuous data.

Independent sample T-test was used to compare the mean values on two individual groups in normally distributed data. In skewed data, group comparison of the median scores was performed by Mann-Whitney-Wilcoxon test. Correlation was expressed by Spearman rank coefficient since either or both of the variables were non-normally distributed.

A Fisher's exact test for association was used to compare categorical data for independent groups due to the number of data in each cell. All analyses were 2-sided and a p-value < 0.05 was considered statistically significant.

Results

Demographic Characteristics:

Demographic characteristics of the patients and controls are presented in Table 1. The study population comprised 39 adult patients diagnosed with JDM in childhood, and 39 healthy controls who were individually matched for age and sex. For the JDM patients the median age was 32.7 years (range 18.3– 55.4). The median ages were 31.9 years for

female patients (range 18.3 – 54.4) and 33.5 years (range 18.3 – 46.2) for male patients. A total of 18 (46%) of the patients were married/cohabitant, and 3 were divorced. For the controls the median age was 32.5 years (range 18.2 – 55.5). A total of 22(56%) of the controls were married/cohabitant and none were divorced.

Table 1
Demographic characteristics of patients and controls

Characteristics(n)	JDM (39)	Healthy controls (39)
Female (%)	21(53.8)	21(53.8)
Age years range (median)	18.3 – 55.4 (32.7)	18.2 – 55.5 (32.5)
Marital status	(n=39)	(n=39)
Married/cohabitant (%)	18 (46)	22 (56)
Divorced/seperated (%)	3 (8)	0 (0)
Single (%)	18 (46)	17 (44)
Education	(n= 39)	(n=39)
7-10 year primary school (%)	3 (7.7)	2 (5.1)
1-2 years secondary school (%)	13 (33.3)	10 (25.6)
3 years secondary school (%)	6 (15.4)	10 (25.6)
University 4 years or less (%)	11 (28.2)	10 (25.6)
4 years or more at university (%)	6 (15.4)	7 (18)
Occupation	(n=38)	(n=39)
Full time paying job (%)	20 (53)	25 (64)
Full time study (%)	8 (21)	9 (23)
Part time paying job (%)	4 (10.5)	2 (5)
Unemployed (%)	2 (5)	0
Disablement benefit/other social benefit (%)	4 (10.5)	3 (8)
Annual income	(n=37)	(n=37)
< 200 000 NOK (%)	13 (35)	11 (30)
200 000 – 300 000 NOK (%)	12 (32.5)	3 (8)
300 000- 400 000 NOK (%)	10 (27)	13 (35)
> 400 000 NOK (%)	2 (5.5)	10 (27)

Group variables are presented as numbers, median and percentage (%). Sample size ranges from 37-39 due to missing information from participants. One patient and one control worked part-time in addition to receiving disability benefit, but are only labelled as receiving disability benefit.

Education, Occupation and Income:

The level of educational achievement was almost equal between the two groups. There were no statistically significant differences between patients and controls in the number of full-time workers using a Fisher’s exact test. There was however a statistically significant difference in the level of income between patients and controls. When comparing full-time workers, the patients had lower income than the controls. 9 (45%) of the patients earned

more than 300 000 NOK annually and 22 (88%) of the controls. This was significant at a p-level of 0.007 using Fisher's exact test.

Among patients who did not work full-time, 5 reported to have done so previously but were currently unable to do so due to their health problems. One patient reported never to have been able to work or study full-time due to health problems. Two of the patients who worked full-time were currently on sick leave for unknown reasons. None of the controls reported to be on sick leave.

Clinical Characteristics:

Clinical characteristics of the patients are presented in Table 2. Disease onset is defined as the time of diagnosis. The median age at disease onset was 9.6 (range 2.3-19.2) years. One patient was 19 years and 3 months old at time of diagnosis and above the 18 age limit, but was included since the symptoms existed two years before receiving the diagnosis. The median disease duration was 22.2 (range 1.8-36.1) years from diagnosis. Disease activity was measured by DAS (range 0-20), and disability level by HAQ (range 0-3). 30 patients (77%) had $DAS \geq 3$, and 14 patients (36%) had $HAQ > 0$ (Sanner et al, 2009). HAQ scores were related to older age in patients (p-value of 0.032 using a Spearman correlation test). There was no significant association between age and DAS score.

Table 2
Clinical Characteristics of Patients (n=39)

Clinical variable	Median (range)
Age at disease onset	9.6 (2.3 – 19.2)
Disease duration (year)	22.2 (1.8 – 36.1)
DAS score	4.5 (0.0 – 13.0)
HAQ score	0.0 (0.0 – 1.38)

Disease onset is defined as the time of diagnosis. Disease duration is defined as time between answering the questionnaire and time of diagnosis.

DAS: Disease activity score, range 0 (no skin or muscle involvement) – 20.

HAQ: Health assessment questionnaire, range 0 (no disability) – 3 (unable to do).

Health-related and global quality of life in patients with JDM versus healthy controls.

Differences in HRQoL and GQoL

The scores from SF-36 are detailed in Table 3. The PCS and the subscales physical functioning and general health were statistically significantly lower (worse) in the JDM patients than the control group. In the mental component scales no significant differences emerged between the two groups. A Spearman rank correlation showed that physical functioning reflected by the SF-36 score was lower with increasing age (p-value of 0.04) in the patient group but not in the control group. Age however had no impact on the scores for general health in either group. Vitality reflected by SF-36 scores was lower with increasing age in the control group (p-value of 0.034), but not in the patient group.

Table 3
HRQoL measured by SF-36 in adults with JDM and controls

	Patients(n=39) Median(range)	Controls(n=39) Median (range)	P-value
Physical functioning	95.0 (20.0 – 100.0)	100.0 (20.0 – 100.0)	0.011
Role physical	100.0 (00.0 – 100.0)	100.0 (00.0 – 100.0)	0.060
Bodily pain	84.0 (21.0 – 100.0)	84.0 (31.0 – 100.0)	0.871
General health	67.0 (17.0 – 100.0)	82.0 (20.0 – 80.0)	0.009
PCS	52.6 (26.9 – 61.5)	56.4 (32.1 – 62.2)	0.039
Vitality	55.0 (15.0 – 90.0)	65.0 (15.0 – 100.0)	0.211
Social functioning	100.0(25.0 – 100.0)	100.0 (25.0 – 100.0)	0.711
Role emotional	100.0 (00.0 – 100.0)	100.0 (00.0 – 100.0)	0.215
Mental health	88.0 (36.0 – 100.0)	88.0 (44.0 – 100.0)	0.924
MCS	53.9 (21.9 – 65.7)	54.3 (18.7 – 62.8)	0.893

Values are the median score (range) for each domain. A higher score indicates a better quality of life. P values were determined by Mann-Whitney-Wilcoxon-test. P-values marked in bold indicate a statistically significant difference between the groups.

GQoL was measured by QoLS-N, and there were no significant differences between the two groups using an Independent sample T-test (not shown in table). The mean score for the patients was 91.23 with a standard derivation of 10.23. In the control group the mean

score was 91.13 with a standard derivation of 9.17. The mean scores for male and female were also similar between the groups.

Within the individual items of QoLS-N, patients were less satisfied with their health and personal safety (item 2, statistically significant at p-value of 0.003) and intellectual development (item 9, statistically significant at p-value of 0.028) than the controls. They were however more satisfied with their relationship to parents and relatives (item 3, statistically significant at p-value of 0.008).

Table 4
Median and range for QoLS-N items (score range 1-7) for JDM patients and controls

	JDM patients	Control group	
	Median (range)	Median (range)	P-value
1. Material well-being and financial security	6.00 (4.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
2. Health and personal safety	5.00 (2.00 – 7.00)	6.00 (2.00 – 7.00)	0.003
3. Relationship with parents, siblings and other relatives	7.00 (4.00 – 7.00)	6.00 (1.00 – 7.00)	0.008
4. Having and raising children	6.00 (2.00 – 7.00)	6.00 (1.00 – 7.00)	NS
5. Relationship with spouse or significant other	6.00 (4.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
6. Relationship with friends	6.00 (4.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
7. Activities related to helping or encouraging others	6.00 (4.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
8. Activities related to local and national government	5.00 (1.00 – 7.00)	6.00 (1.00 – 7.00)	NS
9. Intellectual development	5.00 (3.00 – 7.00)	6.00 (2.00 – 7.00)	0.028
10. Personal understanding	6.00 (2.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
11. Occupational role	6.00 (3.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
12. Creativity and personal expression	5.00 (1.00 – 7.00)	6.00 (1.00 – 7.00)	NS
13. Socializing	6.00 (3.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
14. Passive and observational activities	6.00 (4.00 – 7.00)	6.00 (4.00 – 7.00)	NS
15. Active and participatory recreational activities	6.00 (2.00 – 7.00)	6.00 (3.00 – 7.00)	NS
16. Independence	7.00 (4.00 – 7.00)	6.00 (3.00 – 7.00)	NS

Values are expressed as median and range. Higher scores indicate better quality of life. P-values were determined by Mann-Whitney-Wilcoxon-test. P-values marked in bold indicate a statistically significant difference between the groups.

Correlation between HRQoL and GQoL

A Spearman rank correlation showed no statistically significant correlation between subscores of SF-36 and the total score of QoLS-N in the patients group. However there was a significant correlation in the control group which is detailed in Table 5. A positive

correlation between SF-36 and QoLS-N would indicate that better HRQoL correlates with better GQoL.

Table 5

Correlation between SF-36 and QoLS-N in adults with JDM and age and sex matched healthy controls.

SF-36 subscales	QoLS-N JDM patients		QoLS-N Controls	
	Cor. Coeff	P-value	Cor. Coeff	P-value
Physical functioning	0.054	0.746	0.315	0.051
Role physical	0.167	0.310	0.341	0.033
Bodily pain	-0.094	0.568	0.440	0.005
General health	0.216	0.187	0.351	0.029
PCS	0.097	0.557	0.269	0.098
Vitality	0.227	0.164	0.301	0.063
Social functioning	0.278	0.086	0.281	0.083
Role emotional	0.153	0.351	0.431	0.006
Mental health	0.252	0.122	0.587	< 0.001
MCS	0.250	0.125	0.408	0.010

Spearman rank correlation used for correlation between HRQoL and GQoL. P-values in bold indicate statistically significant association between SF-36 and QoLS-N.

Relationship between GQoL and HRQoL and disease activity and physical disabilities

Table 6

Correlation between SF-36 subscores and DAS and HAQ scores

SF-36 subscale	DAS		HAQ	
	Cor. Coeff	P-value	Cor. Coeff	P-value
Physical functioning	-0.484	0.002	-0.735	< 0.001
Role physical	-0.418	0.008	-0.378	0.018
Bodily pain	-0.146	NS	-0.234	NS
General health	-0.367	0.022	-0.362	0.024
PCS	-0.422	0.007	-0.516	0.001
Vitality	-0.35	NS	-0.091	NS
Social functioning	-0.265	NS	-0.333	0.038
Role emotional	-0.220	NS	-0.277	NS
Mental health	-0.032	NS	-0.100	NS
MCS	-0.043	NS	-0.021	NS

Spearman rank correlations were used to find correlation between SF-36 and disease activity measured by DAS and HAQ. P-values in bold indicate statistically significant association between SF-36 and disease activity score measured by DAS and HAQ.

The Spearman rank correlation test was used for association between SF-36 and DAS and HAQ. The score on DAS and HAQ had a significant association with physical functioning,

role physical, general health and the sum score on PCS as shown in Table 6. HAQ score also had a significant association with social functioning. A negative correlation coefficient indicates that disease activity and physical disabilities is related to low score on HRQoL measured by SF-36. There were no significant associations between QoLS-N and DAS and HAQ scores (not shown).

Discussions

It has been increasingly recognized that HRQoL and GQoL are important issues in order to provide a comprehensive understanding of the impact of a disease on patient life. This study found that JDM patients have poorer HRQoL measured by SF-36 in physical domains, compared with healthy controls, with physical functioning and general health being significantly lower for patients with JDM than the controls. It is not surprising that HRQoL of JDM patients can be affected by the disease, and the subgroups of SF-36 enable us to evaluate which aspects of quality of life are affected. Physical functioning quantifies limitation in performing physical activities, whereas general health quantifies patients' perception of their health. (Ware et al, 2005).

GQoL was measured by QoLS-N and the total score was found to be similar between patients and controls, although within the different items of QoLS-N patients were significantly less satisfied with their health and personal safety and their intellectual development. They were however significantly more satisfied with their relationship with parents and close relatives. A study based on face-to-face interviews with adult patients with juvenile idiopathic arthritis found the patients to have strong emotional bonds towards their parents based on the parent's involvement in the disease follow-up (Östlie, Johansson and Möller, 2009). Many of the patients in this study may have similar experiences, which could explain these findings.

Poorer physical functioning was associated with increasing age among patients with JDM. An explanation for this could be that recent improvements in care and treatment have had a favourable outcome in younger patients. A recent paper has shown that patients in this cohort were treated less aggressively before 1990, which had a detrimental effect on other long-term outcome scores (Sanner et al, 2009). The number of patients in this cohort is relatively small and larger studies may be necessary to obtain further information regarding this finding.

Data from a Norwegian SF-36 health survey has shown that physical health scores were reduced with increasing age (Loge and Kaasa, 1998), however there was no correlation between age and physical functioning in the control group. An explanation for this could be that this cohort is relatively young. The median age in the control group was 32.5 years and there was only one patient/control over the age of 50. A relatively young cohort could mean the effect of age would not yet be apparent in the healthy control group.

Results from this study indicate that a majority of the patients still have some disease activity or sequelae from the disease measured by HAQ and DAS. These have impacted their health related quality of life, with an impact on physical functioning, role physical and general health. In addition, physical disabilities measured by HAQ also had a relationship with social functioning. Despite this, adults with JDM had similar scores as the controls in the subscales vitality, role emotional, mental health and the summary score of mental domains in SF-36. The patients and the controls also had similar total score on GQoL measured by QoLS-N, indicating that the impact of the disease on mental health domains and GQoL is limited or it has no impact at all.

Several factors may contribute to good outcomes in satisfaction with life and mental health. Individuals may adapt to their situation over time and this response shift can play

an important role in their perception of quality of life (Rapkin and Schwartz, 2004; Schwartz, Andresen, Nosek and Kahn, 2007). Measurement of global quality of life and mental health can however be difficult and arbitrary since individuals do not have the same frame of reference when answering a given question. Some studies have found chronic illness or health to have an impact on QoL (Foster et al, 2003; Prouty, Ward-Smith and Hutto, 2006), while other studies have found that people with severe chronic illnesses have reported QoL equal or superior to healthy people (Schwartz, Feinberg, Jilinskaia, Applegate, 1999; Wahl, Rustøen, Hanestad, Gjengedal og Moum, 2005). This study has found adults with JDM to be as content with their quality of life measured by QoLS-N and mental health measured by SF-36 as healthy controls. The significant factors contributing to this finding are however not clearly apparent.

The study showed no correlation between the sum score of QoLS-N and SF-36 scores among the patients, but a correlation existed among the controls. Patient adaptation to their situation could offer an explanation for this finding. Adaptation to a situation regarding health would imply a satisfaction with quality of life may be less affected by health. The DAS and HAQ scores were not associated to GQoL, indicating that poor outcome on disease activity and physical disability should not necessarily be equated with poor quality of life. Findings similar to this were found in a study of patients with Cystic Fibrosis who, despite symptoms from a serious disease, reported to have better quality of life than controls (Wahl et al, 2005).

Patients in this study have a similar range of education to the control group but despite similar educational achievement, the annual income level was less for the patients than the

controls. It should be noted that the controls answered the questionnaire on average of one year later than the patients, however this is unlikely to count for these differences.

Lack of relationship between education and income in patients with chronic illness has been demonstrated in a study of young adults with persisting absence epilepsies (Olsson and Campenhausen, 1993). Other studies have shown that adults with rheumatic diseases are comparable with healthy controls in terms of level of education, but results on occupational outcomes have varied in different studies (Packham and Hall, 2002; Foster et al, 2003). Employment status can play an important role in social integration and can be a good measure of the social consequences of JDM. A study showed that 78% of patients with Juvenile Arthritis reported the disease to have influenced their choice of occupation (Archenholtz et al, 2001). In the present study it is unclear whether the level of education has led to employment appropriate to that level, or if the disease has influenced the choice of education and/or career. The patients were statistically significantly less content with their intellectual development (like education) measured by QoLS-N, compared with the controls. In order to help patients facing potential occupational challenges, early career advice with follow-up into adulthood may be an area to focus on in the future.

The number of patients in this cohort is relatively small, which is a limitation on the study. JDM is a rare disease and a low sample size is inevitable in Norway. A large part of the expected incidence in Norway is however covered, and the number of identified cases does correlate with annual incidence in other cohorts (Symmons, Stills and Davis, 1995; Mendez et al, 2003; Sanner et al, 2009). Patient characteristics in this cohort also correlate with other cohorts regarding medical treatment, female predominance, age at diagnosis and duration from disease onset to diagnosis (Bitum et al, 1964; Huber et al, 2005; Sanner et al, 2008). In order to obtain larger samples, multicentre studies would be required.

A further limitation of this study lies within the conceptual framework of quality of life and the constraints of QoLS-N and SF-36. Although used widely, they are generic instruments which may not cover or accurately measure domains significant to adults with JDM. In order to achieve a more comprehensive knowledge about quality of life in JDM and the multidimensional aspects that could influence the quality of life, further research are required. This would include both qualitative research which may reveal more insight on experiences living with JDM, and quantitative research to cover other dimensions which could affect patients' global and health-related quality of life.

Conclusion

This case-control study is to my knowledge the first to compare QoL in adult JDM patients to healthy controls. The study found JDM patients to have poorer HRQoL measured by SF-36 within physical functioning and general health, compared with healthy controls. There were however no significant differences between the two groups in the mental component scales of SF-36.

GQoL was measured by QoLS-N. Within the different items of QoLS-N, patients were less satisfied with their health and personal safety, and their intellectual development. They were however more satisfied with their relationship with parents and close relatives. There were no significant differences between the patients and the controls in the total score of QoLS-N. In this study disease activity and physical disabilities had an impact on patients HRQoL, but had no impact on GQoL. No significant relationship between HRQoL and GQoL was found in patients with JDM, but there was a relationship between HRQoL and GQoL in the control group. Patients and controls in this study had a similar range of education and there were no statistically significant differences between the two

groups within data regarding occupation. Despite this, the annual income level was less for the patients than the controls.

Further studies would be desirable to achieve a more comprehensive knowledge about QoL in adults with JDM, due to limitations based on the constraints of the QoLS-N and SF-36 instruments.

Relevance to Clinical Practice

Quality of life and improving quality of life in patients are important goals within nursing. Consequently, information regarding patients' quality of life is important for nurses in order to promote quality of life in patients with JDM and to focus on issues which can improve patients' lives. Provision of information to patients has traditionally been an important assignment for nurses. Information from this study regarding quality of life can be communicated to future patients in order to help them understand more about their disease. Knowledge about what to expect in the future can also help patients obtain the best possible quality of life for themselves.

Reference List

- Apaz, M. T., Saad-Magalhães, C., Pistorio, A., Ravelli, A., de Oliveira Sato, J., Marcantoni, M. B., Meiorin, S., Filocamo, G., Pilkington, C., Maillard, S., Al-Mayouf, S., Prahalad, S., Fath, A., Joos, R., Schikler, K., Mozolova, D., Landgraf, J.M., Martini, A. and Ruperto, N. (2009). Health-Related Quality of Life of Patients with Juvenile Dermatomyositis: Result From the Paediatric Rheumatology International Trials Organisation Multinational Quality of Life Cohort Study. *Arthritis & Rheumatism*, 61(4), 509 – 517.
- Archenholtz, B., Burckhardt, C. S. and Sagsten, K. (1999). Quality of life of woman with systemic lupus erythematosus or rheumatoid arthritis: domain of importance and dissatisfaction. *Quality of Life Research*, 8(5), 411 – 416.
- Archenholtz, B., Nordborg, E. and Bremell, T. (2001). Lower level of education in young adults with arthritis starting in the early adulthood. *Scandinavian Journal of Rheumatology*, 30, 353 – 355.
- Bitnum, S., Daeschner, C.W.Jr, Travis, L.B, Dodge, W.F and Hopps, W.F.(1964). Dermatomyositis. *Journal of Pediatrics*, 64, 101 – 131.
- Bohan, A. and Peter, J. B. (1975), Polymyositis and dermatomyositis (first of two parts), *New England Journal of Medicine*, 292(7), 344 – 347.
- Bonde, R. K., Klein-Gitelman, M.S., Miller, M.I., Lechman, T.S. and Pachman, L.M. (2003). Disease Activity Score for Children With Juvenile Dermatomyositis: Reliability and Validity Evidence. *Arthritis & Rheumatism*, 49(1), 7-15.
- Burckhardt, C.S., Woods, S.L., Scultz, A.A. and Ziebarth, D.M. (1989). Quality of Life of adults with chronic illness: A psychometric study. *Research in Nursing and Health*, 12, 347 – 354.
- Burckhardt, C. B., Archenholtz, B. and Bjelle, A. (1993). Quality of life of woman with systemic lupus erythematosus: a comparison with woman with rheumatoid arthritis. *Journal of Rheumatology*, 20(6), 977 – 981.
- Burckhardt, C.S., Anderson, K.L., Archenholdt, B. and Hägg, O. (2003). The Flanagan Quality of Life Scale: Evidence of construct Validity. *Health and Quality of Life Outcome*, 1, 59 – 66.
- Ebenhardt, K, Larsson, B.M. and Nived, K. (1993). Early Rheumatoid Arthritis – some Social, Economical and Psychological Aspects. *Scandinavian Journal of Rheumatology*, 22(3), 119 – 123.

- Ferrans, C. E. (1990). Development of quality of life index for patients with cancer. *Oncology Nursing Forum*, 17(3 supplement), 15-19.
- Flanagan, J.C. (1978). A research Approach to Improving Our Quality of Life. *American Psychologist*, 32(2), 138 – 147.
- Foster, H. E., Marshall, N., Myers, A., Dunkley, P. and Griffiths, I.D. (2003). Outcome in adults with juvenile idiopathic arthritis: A quality of life study. *Arthritis and Rheumatism*, 48(3), 767 – 775.
- Fries, J. F., Spitz, P., Kraines, R. G. and Holman, H. R., (1980). Measurement of patient outcome in arthritis. *Arthritis & Rheumatism*, 23, 137 – 145.
- Huber, A. M., Lang, B., LeBlank, C. M. A., Birdi, N., Bolaria, R. K., Malleson, P., MacNeil, I., Momy, J.A., Avery, G. and Feldman, B.M. (2000). Medium- and long-term functional outcomes in a multicenter cohort of children with Juvenile Dermatomyositis. *Arthritis and Rheumatism*, 43(3), 541 – 549.
- Huber, A. and Feldman, B. M. (2005). Long-term Outcomes in Juvenil Dermatomyositis: How did we get here and where are we going? *Current Rheumatology Reports*, 7, 441 – 446.
- Loge, J. H. and Kaasa, S. (1998). Short Form 36(SF-36) health survey: normative data From the general Norwegian population. *Scandinavian Journal of Social Medicine*, 26(4), 250 – 258.
- Loge,J.H., Kaasa,S., Hjermsstad,M.J. and Kvien,T.K. (1998) Translation and Performance of the Norwegian Sf-36 Health Survey in patients with rheumatoid arthritis. Data quality, scaling assumptions, reliability and construct validity. *Journal of Clinical Epideminology*, 51(11), 1069 – 1076.
- Mendez, E.P., Lipton, R. and Ramsey-Goldman, R., Roettcher, P., Bowyer, S. Dyer, A. and Packman, L.M. (2003). US incidence of juvenile dermatomyositis, 1995 – 1998: result from the National Institute of Arthritis and Musculoskeletal and Skin Disease Registry. *Arthritis and Rheumatism*, 49, 300 – 305.
- Miller, F.W., Rider, L.G., Chung, Y.L., Cooper, R., Danko,K., Farewell, V., Lundberg, I., Morrison, C., Oakley, L., Oakley, I., Pilkington, C., Venvovsky, J., Vincent, K., Scott, D.L. and Isenberg, D.A. (2001). Proposed preliminary core set measures for disease outcome assessment in adult and juvenile idiopathic inflammatory myopathies. *Rheumatology*, 40, 1262 – 1273.
- Olsson, I. and Campenhausen, G. (1993). Social adjustment in Young Adults with Absence Epilepsies. *Epilepsia*. 34(5), 846 – 851.

- Packham and Hall, 2002. Long-term follow-up of 246 adults with juvenile idiopathic arthritis: education and employment. *Rheumatology*, 41(12), 1436 – 1439.
- Prouty, D., Ward-Smith, P and Hutto, C.J. (2006). The lived experience of adults survivors of childhood cancer. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, 23, 143 – 151.
- Rapkin, B. D. and Schwartz, C. E. (2004). Toward a theoretical model of quality-of-life appraisal: Implications of findings from studies of response shift. *Health and Quality of Life Outcomes*.2, 14 – 26.
- Sanner,H., Gran,J.T., Sjaastad, I. and Flatø,B. (2009). Cumulative organ damage and prognostic factors in juvenile dermatomyositis; a cross-sectional study median 16,8 years after symptom onset. *Rheumatology*, 48(12), 1541 – 1547.
- Schwartz, C. E., Andersen, E. M., Nosek, M. A., Kahn, G. L. and the RRTC Expert Panel on Health Status Measurement.(2007). Response Shift Theory: Important Implications for Measuring Quality of Life in People With Disability. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 88, 529 – 536.
- Schwartz, C.E., Feinberg, R.G., Jiliskaia, E. and Applegate, J.C. (1999). An evaluation of a psychosocial intervention for survivors of childhood cancer: Paradoxical effects of response shift over time. *Psycho-Oncology*, 8, 33 – 34.
- Statistisk sentralbyrå.(utdannelse): <http://ssb.no/utniv/tab-2009-08-25-03.html>
- Statistisk sentralbyrå (lønn):
http://ssb.no/statistikkbanken/Default_FR.asp?PXSid=0&nvl=true&Planguage=0&ti1side=selectable/hovedtabellHjem.asp&KortnavnWeb=lonnansatt
- Symmons, D.P., Stills, J.A. and Davis, S.M. (1995). The incidence of juvenile dermatomyositis: results from nation-wide study. *British Journal of Rheumatolog.*, 34, 732 – 736.
- Wahl,A.K., Burckhardt, C.S., Wiklund, I. and Hanestad, B.R (1998). The Norwegian Version of the Quality of Life Scale (QOLS-N). A validation and reliability study in patients suffering from psoriasis. *Scandinavian Journal of Caring Science*, 12(4), 215 – 222.
- Wahl, A. K., Rustøen,T., Hanestad, B.R., Lerdal, A. and Moum, T. (2004). Quality of life in the general Norwegian population, measured by the Quality of Life Scale (QOLS-N). *Quality of Life Research*, 13(5), 1001 – 1009.
- Wahl, A.K., Rustøen,T., Hanestad, B.R., Gjengedal, E. and Moum, T. (2005). Living with cystic fibrosis: impact on global quality of life. *Hart and Lung*, 34(5), 324 – 331.

- Ware, J.E.W.Jr, Kosinski, M. og Gandek, B. (2005). SF-36 Health Survey. Manual & Interpretation Guide, Boston MA, New England Medical Centre.
- World Health Organization. (1947). Constitution of the World Health Organization. No.2. Geneve. WHO.
- Östlie, I. L, Johansson, I. and Möller, A. (2009). Struggle and adjustment to an insecure everyday life and an unpredictable life course. Living with juvenile arthritis from to adult life – an intervju study. *Disability and Rehabilitation*, 31(9), 666 – 674.

REFLEKSJONSOPPGAVEN:

MÅLING AV LIVSKVALITET – EN VURDERING AV RESULTATETS GYLDIGHET	
1	Innledning..... 24
1.1	Bakgrunn for studien..... 25
1.2	Presentasjon av funn fra studien..... 26
1.3	Studiens relevans for sykepleiefaget..... 26
2	Begrepene livskvalitet og helse relatert livskvalitet..... 27
3	Valg av metode og instrumenter..... 29
3.1	Instrumentene Quality of Life Scale-N og Short Form 36..... 29
4	Instrumentenes reliabilitet og validitet..... 30
4.1	Instrumentets reliabilitet..... 30
4.1.1	Test-retest..... 30
4.1.2	Intern konsistens..... 31
4.2	Forhold ved denne studien som kan ha innvirkning på dataenes reliabilitet..... 32
4.4	Instrumentets validitet..... 34
4.3.1	Innholdsvaliditet..... 35
4.3.2	Begrepsvaliditet..... 35
4.4	Forhold ved denne studien som kan ha innvirkning på dataenes validitet..... 36
4.4.1	Dataenes innholdsvaliditet..... 36
4.4.2	Dataenes begrepsvaliditet..... 38
5	Konklusjon..... 42
6	Referanseliste..... 43

Måling av livskvalitet - en vurdering av resultatenes gyldighet.

1. INNLEDNING

Denne refleksjonsoppgaven er en del av en todelt masteroppgave. Tema for masteroppgaven er: "Livskvalitet til pasienter med Juvenil Dermatomyositt". Undersøkelsen til grunn for masteroppgaven har til hensikt å få svar på hvordan pasienter med diagnosen Juvenil Dermatomyositt (JDM) vurderer sin livskvalitet som voksne. Resultatene fra studien fremkommer i den del av masteroppgaven som presenteres i artikkelformat. I denne refleksjonsoppgaven ønsker jeg å se nærmere på gyldighet av resultatene fra gjennomført studie.

Problemstillingen i refleksjonsoppgaven vil være:

Er resultatene fra denne studie basert på valide og reliable data?

Et viktig mål i denne studien er at funnene som fremkommer er til å stole på. Spørreskjemaene Short Form-36(SF-36) og Quality of Life Scale(QoLS-N) er valgt som instrument for å måle livskvalitet i denne studien, og jeg ønsker i denne delen av oppgaven å vurdere om data innhentet ved hjelp av disse spørreskjemaene, kan regnes som reliable og valide data. Jeg ønsker å se på instrumentenes psykometriske egenskaper. Med psykometriske egenskaper menes instrumentets kvalitet basert på dets reliabilitet og validitet. Reliabilitet går på hvor nøyaktig instrumentet måler det de skal måle, mens validitet sier noe om i hvilken grad instrumentet måler det skal måle (Polit og Beck, 2008). Jeg vil se på hvordan instrumentenes psykometriske egenskaper er beskrevet i ulike studier. En vurdering av instrumentenes reliabilitet og validitet må imidlertid gjøres gang på gang i hvert enkelt studie, for å vurdere om resultater fra gjennomført studie kan anses som gyldige. Jeg vil derfor se på forhold ved instrumentene som kan ha betydning for dataenes reliabilitet og validitet i denne studien.

Data som fremkommer i en studie som denne, vil være influert av både tilfeldige og systematiske målefeil (Laake og Benestad, 2004). Ved tilfeldige målefeil opptrer målefeilene tilfeldig og feilene vil i like stor grad kunne avvike fra de sanne verdiene i begge retninger. Det vil si at målt verdi vil kunne være både høyere eller lavere enn den "sanne" verdien. Tilfeldige målefeil vil være en trussel for reliabiliteten. Ved systematiske

målefeil vil avvikene gå i en bestemt retning. Dette innebærer at systematiske målefeil også vil være en trussel for validiteten av studien, fordi det gir data som systematisk avviker fra sanne data (Laake et al, 2004). Målefeil kan være knyttet til både instrumentene og respondentene i studien, og jeg vil derfor også se på forhold ved utvalget som kan ha betydning for studien reliabilitet og validitet.

1.1. Bakgrunn for studien

Studien er en del av et prosjekt ved Revmatologisk avdeling, Oslo universitetssykehus, Rikshospitalet. I dette prosjektet har en studert forekomst, årsaksfaktorer og prognoser hos pasienter med diagnosen Juvenil Dermatomyositt diagnostisert fra 1970 – 2005. I den forbindelse har jeg hatt en selvstendig del av studien, hvor jeg har sett på hvordan disse pasientene vurderer sin livskvalitet etter fylt 18 år.

Bindevevssykdommen Juvenil Dermatomyositt (JDM) er en autoimmun sykdom. En unormal reaksjon i immunsystemet fører til betennelse i blodkar i hud og muskulatur. 2-3 barn/ungdom får sykdommen hvert år, og årsaken til sykdommen er ukjent. Sykdommens grad er svært varierende, fra en mild form til en alvorlig funksjonshemmet tilstand. Sykdommen kan brenne ut og gå til ro, og den kan være karakterisert av rolige perioder med et eller flere tilbakefall etter at behandlingen har stoppet. Sykdommen kan være dødelig i svært alvorlig tilfeller der det oppstår komplikasjoner med lunger, mage og tarm eller hjerte (Feldman, Rider, Reed og Peckman, 2008).

JDM er en sjelden diagnose, og livskvaliteten til denne pasientgruppen er i liten grad beskrevet i studier. Søk via MEDLINE og CINAHL 1 desember 2009 på søkeordene ”quality of life ” og ”juvenile dermatomyositis” gav et søkeresultat på 14 artikler. Kun én av disse artiklene, omhandler pasienter over 18 år (Huber et al,2000). Studien hadde spørsmål relatert til fysisk funksjon, utdanning, arbeidsforhold og hvor fornøyd pasientene var med utviklingen av sykdommen sin. Studien hadde sine begrensninger ved at noen av respondentene svarte på spørsmålene over telefon og at det ble ikke brukt kontrollgruppe. På grunn av lite kunnskap og tilgjengelig informasjon vedrørende livskvaliteten til denne pasientgruppen, er det behov for studier som belyser dette området.

1.2. Presentasjon av funn fra studien

I studien blir pasienter med diagnosen JDM (n=39) sammenlignet med friske kontroller (n=39). Disse har besvart spørreskjemaet QoLS-N og SF-36 i forbindelse med undersøkelser ved Rikshospitalet. Resultater fra studien er presentert i artikkelen og viser at:

- Pasientene har sammenlignet med kontrollene statistisk signifikant dårligere helserelevanter livskvalitet målt ved SF-36 innenfor domene fysisk funksjon og generell helse.
- Ved måling av global livskvalitet var det ingen statistisk signifikante forskjeller mellom pasienter og kontroller i totalskåren på QoLS-N, men statistisk signifikante forskjeller på enkeltskårene. Pasientene var mindre fornøyd med sin helse og utdanning/studier. De var imidlertid mer fornøyd med sitt forhold til foreldre og nær familie enn kontrollene.
- Det var ingen statistisk signifikante sammenhenger mellom helserelevanter livskvalitet og global livskvalitet hos pasientene.
- Blant pasientene var det en statistisk signifikant sammenheng mellom sykdomsaktivitet og domene fysisk funksjon, fysisk rollefunksjon og generell helse målt ved SF-36. Det var også en statistisk signifikant sammenheng mellom fysisk funksjonsnivå og domene fysisk funksjon, fysisk rollefunksjon, generell helse og sosial funksjon målt ved SF-36. Det var ingen statistisk signifikante sammenheng mellom global livskvalitet og sykdomsaktivitet eller fysisk funksjon.
- Pasienter og kontroller har tilnærmet likt utdanningsnivå, til tross for dette har pasientene statistisk signifikant lavere inntekt enn kontrollene.

1.3. Studiens relevans for sykepleiefaget

Sykepleiefaget har tradisjonelt hatt et helhetlig syn på mennesket, med fokus på både fysisk, psykisk, sosiale og åndelige behov. Som sykepleier er god livskvalitet eller øket livskvalitet et viktig mål i pleie og behandling av pasienter (King og Hinds, 2003). Både fortiden og forventningen til fremtiden er viktig for hvordan livet oppleves i dag

Tatarkiewicz, 1976). En helhetlig sykepleie vil innebære at en ikke bare er opptatt av pasientens situasjon her og nå, men også har fokus på fremtiden.

Resultater fra forskning er et viktig utgangspunkt for å kunne gi pasienter med JDM den sykepleie han/hun trenger. Ikke alle resultater vil medføre at en som sykepleier kan legge forholdene bedre til rette for at pasientene kan få en bedre livskvalitet. I enkelte situasjoner vil en kartlegging av pasientenes livskvalitet i stedet medføre at informasjon vedrørende resultater kan videreformidles til pasienter, noe som kan være til hjelp for å forså mer om sykdommen og det å leve med den.

Innenfor sykepleiefaget er det gjort mye forskning rundt temaet livskvalitet. Søk i databaser på søkeordene livskvalitet og sykepleie viser at dette er noe som opptar sykepleiere både nasjonalt og internasjonalt. Publiserte artikler har blant annet fokusert på hvordan begrepet livskvalitet skal brukes og defineres (Meeberg, 1992; Haas, 1999), utvikling og bruk av instrumenter (Padilla og Grant, 1985; Ferrans, og Powers, 1985) og beskrivelse av livskvalitet til ulike pasientgrupper (Wahl, Burckhardt, Wiklund og Hanestad, 1998; Nortvedt, Riise, Myhr og Nyland, 2000; Barnett, 2005; Prouty, Ward-Smith og Hutto, 2006). Måleinstrumentene jeg har valgt for å måle livskvalitet i min studie, er tidligere tatt i bruk av sykepleiere i flere studier (Wahl et al, 1998; Nortvedt et al, 2000; Burckhardt et al, 2005). Det er en fordel at instrumentene tidligere har vært brukt samt er testet for validitet og reliabilitet. På den måten har jeg funnet fram til instrumenter med gode referanser fra ulike studier.

2. BEGREPENE LIVSKVALITET OG HELSERELATERT LIVSKVALITET

Begrepet livskvalitet er mye brukt innenfor helsefagene, uten at det finnes en felles definisjon av begrepet. Begrepet blir brukt i ulike disipliner, fra ulike perspektiv og har fokus på ulike områder (Spilker, 1996; Fayers og Machin, 2007). Der finnes mange og delte meninger om hva begrepet skal inneholde og hvordan det best skal kunne måles. (Meeberg, 1993; Haas, 1999; Fayers og Hays, 2005). Ulike definisjoner vil fremheve ulike karakteristika av begrepet. Dette medfører at det i utgangspunktet ikke er klart og tydelig hva en måler når en måler begrepet livskvalitet.

Det er imidlertid en generell enighet om at livskvalitet er et multidimensjonalt begrep, og at det inneholder flere dimensjoner som har betydning for livskvalitet (Fayers et al, 2007).

Et sentralt tema blir da hvilke dimensjoner begrepet bør inneholde. Ifølge Spilker (1996) inneholder begrepet livskvalitet hoveddomenene: fysisk og funksjonell status, psykisk status, sosiale interaksjon, økonomiske forhold og eksistensielle faktorer.

Også når det gjelder helserelatert livskvalitet er det ulike syn på hva begrepet bør inneholde (Fayers et al, 2007). Dette kan imidlertid variere innenfor de ulike studier, og kan inkludere aspekter som generell helse, fysisk funksjon, sosial velbefinnende, emosjonell funksjon, kognitiv funksjon, seksuell funksjon, eksistensiell funksjon og rollefunksjon (Fayers et al, 2007).

Ifølge Fayers et al (2007) er det også en generell enighet om at livskvalitet bør måles subjektivt, ved at enkeltmenneske uttrykker sin egen oppfattelse av sin situasjon.

Livskvalitet og helserelatert livskvalitet er tilstander som ikke kan måles direkte, men kan gjøres målbare ved at en spør om det en mener har betydning for begrepene. (Fayers, Hand, Bjordal og Groenvold, 1997). På den måten operasjonaliseres begrepene.

Livskvalitetsbegrepet og begrepet helserelatert livskvalitet kan operasjonaliseres på flere måter.

QoLS-N er et globalt livskvalitetsskjema. I denne sammenheng brukes følgende definisjon på livskvalitet: ” en persons opplevelse av livskvalitet som stammer fra tilfredshet eller misnøye med områder i livet som er viktig for ham eller henne” (Ferrans, 1990).

Sykdommen JDM kan ha innvirkning på pasientenes helse, og det er derfor naturlig også å ta i bruk et instrument som måler helserelatert livskvalitet. Helserelatert livskvalitet er et begrep som relaterer livskvalitet til en persons helse. Verdens Helseorganisasjon har beskrevet helse som ” A state of complete physical, mental and social well-being and not merely the absence of disease or infirmity” (World Health Organization, 1948).

Valg av spørreskjema og hvordan en velger å definere livskvalitetsbegrepet, vil være med å avgjøre hvilke dimensjoner som tas med innenfor begrepet og hva de ulike dimensjonene en søker å studere, inneholder. Det vil være umulig å inkludere alle dimensjonene som livskvalitetsbegrepet kan romme i et instrument, dermed vil ulike instrumenter fokusere på ulike dimensjoner av begrepet (Fayers et al, 2007).

3. VALG AV METODE OG INSTRUMENTER

Innenfor sykepleieforskning blir både kvalitative (Barnett, 2005; Prouty et al, 2006) og kvantitative metoder (Wahl et al, 1998; Nortvedt et al, 2000; Burckhardt et al 2005) tatt i bruk for å beskrive livskvaliteten til pasienter med ulike diagnoser. Jeg har valgt å gjøre en kvantitativ undersøkelse fordi jeg ønsker å se på fellestrekk og tendenser hos pasienter med JDM, samt sammenligne pasientene med en kontrollgruppe. Kvantitativ metode har tradisjonelt vært brukt innenfor livskvalitetsforskning (Wahl og Hanestad, 2004) og bruk av strukturerte spørreskjema er regnet for å være en god måte å ivareta det subjektive i det jeg ønsker å studere (Fayers et al, 2007).

En av fordelene ved å bruke en kvantitativ metode og standardiserte spørreskjema som SF-36 og QoLS-N, er at disse instrumentene er testet for reliabilitet og validitet i flere tidligere studier. En ulempe kan være at spørsmålene i instrumentene er forhåndsbestemte, noe som medfører at en ikke nødvendigvis får med seg alle viktige spørsmål i forhold til pasientgruppen som studeres (Haberman og Bush, 2003).

3.1. Instrumentene Quality of Life Scale-N og Short Form 36

Både det globale livskvalitetsskjemaet QoLS-N og det helserelaterte livskvalitetsskjemaet SF-36, er standardiserte spørreskjemaer. Skjemaene er generelle, slik at det er mulig å sammenligne dataene med andre grupper og da også en ”frisk” kontrollgruppe.

Quality of Life Scale (QoLS) ble utviklet i USA på 1970 tallet med bakgrunn i en undersøkelse der 3000 mennesker i forskjellige alder og med ulik bakgrunn ble spurt om hva de opplevde som var viktig i livet (Flanagan, 1978). QoLS består idag av 16 spørsmål knyttet til livsdomener som fysisk og materiell goder, relasjoner til andre, deltagelse i sosialt samfunnsliv, personlig utvikling, rekreasjon og selvstendighet (Wahl et al, 1998; Burckhardt og Anderson, 2003).

Short form 36 (SF-36) er et skjema som måler helserelatert livskvalitet basert på pasientens opplevelse av generelle helseforhold. Det består av 36 generelle spørsmål. 35 av spørsmålene brukes for å beregne skår på følgende 8 helsedimensjoner; fysisk funksjon,

rollebegrensninger som følge av fysiske problemer, fysisk smerte, generell helse, energi/tretthet, sosial funksjon, rollebegrensning som følge av følelsesmessige problemer og mental helse. Ut fra de 8 helsedomene utarbeides det to hoveddomener: fysisk helse og psykisk helse. De 8 helsedomene ble i sin tid valgt med bakgrunn i at de var mest brukt i andre store surveys og vurdert til best kunne fange opp endringer relatert til sykdom og behandling. I et av spørsmålene i SF-36 blir respondentene spurt om helsa har endret seg, dette svaret er ikke med i utregningen av de 8 helsedimensjoner og blir i liten grad tatt med og behandlet i studier. Det er et empirisk utviklet instrument basert på hva mange respondenter har svart gjennom en rekke undersøkelser i USA (Ware, Kosinski og Gandek, 2005).

4. INSTRUMENTENES RELIABILITET OG VALIDITET

Det er av stor betydning at instrumentene som er valgt er troverdige og generere pålitelige data om det som belyses. Skjemaene som er valgt er testet i flere studier med tanke på validitet og reliabilitet. Som tidligere nevnt sier reliabilitet noe om hvor pålitelige dataene i studien er. Det er et uttrykk for nøyaktighet og bestemmes av hvordan målingene som leder frem til dataene er utført (Hellevik, 2002). Validitet avhenger av i hvilken grad instrumentet måler det den skal måle (Polit et al, 2008).

4.1. Instrumentets reliabilitet

Det finnes ulike tester som tas i bruk i studier for å se på spørreskjemaets reliabilitet. SF-36 og QoLS er begge instrumenter som har vært brukt i flere ulike studier der de har vært testet med tanke på reliabilitet. Test-retest og måling av intern konsistens er to reliabilitetstester som blir mye brukt for å teste pålitelighet av data (Polit et al, 2008).

4.1.1 Test-retest

Test-retest-reliabilitet gjøres for å undersøke stabilitet i målinger. Det testes om 2 målinger gjort under like forhold og forutsetninger og med samme instrument, gir samme resultater

Polit et al, 2008). Spørreskjemaet QoLS-N er i en norsk studie blant pasienter med psoriasis beskrevet til å ha en test- retest reliabilitet (Pearson's r) på 0,83 (Wahl et al, 1998). Ved skalaer blir en test-retest-korrelasjon (reliabilitetskoeffisient) på 0,80 er regnet som god (Polit et al, 2008) og en på 0,70 regnet som tilfredsstillende (Fayers et al, 2005). En høy test-retest reliabilitet kan skyldes at instrumentet er lite sensitivt til forandringer. Studie fra Sverige (Burckhardt, Archenholtz og Bjelle, 1992) beskriver imidlertid at både instrumentet QoLS-S og instrumentet som målte sykdomsaktivitet hadde høy test-retest reliabilitet, noe som kan tyde på at pasientenes status ikke hadde endret seg og at instrumentet QoLS-S gav stabile målinger.

Test-retest reliabilitet på SF-36 fra populasjonsstudier i USA, er rapportert til å være gode (Brazier et al, 1992; Ware et al, 2005). Jeg har imidlertid ikke funnet studier der det har vært gjennomført en test-retest korrelasjon i forbindelse med SF-36 i Norge. Test-retest reliabilitet er en viktig form for reliabilitetstest for livskvalitetsinstrument, men kan være vanskelig å måle av praktiske årsaker som for eksempel at respondentene og fenomenene som måles bør være forholdsvis konstante (Fayers et al, 2007). På grunn av den praktiske gjennomføringen av denne studien har jeg ikke undersøkt stabilitet i målingene ved hjelp av test-retest. Dette vært en tverrsnittundersøkelse der respondentene kun har svart på spørreskjemaet en gang.

4.1.2. Intern konsistens

Intern konsistens sier noe om graden av samsvar på spørsmål innenfor en og samme skala av et instrument, og kan måles ved hjelp av Cronbach's alpha. En verdi på mer enn 0,70 regnes som tilfredsstillende (Fayers et al, 2007).

QoLS-N brukt i studier i Norge har dokumentert en Cronbach alfa på 0.86 (Wahl et al, 1998). Cronbach alpha på QoLS-N målt i min studie, er på 0.82. Ved bruk av SF-36 i norske studier er Cronbach's alpha målt til å rangere fra fra 0.80 (emosjonell rolle) til 0.93 (kroppslig smerte) (Loge and Kaasa, 1998). I min studie er intern konsistens målt ved Cronbach's alpha på subskalaene i SF-36, målt til å være mellom 0.69 (generell helse) og 0.88 (fysisk funksjon). Cronbach alpha ligger dermed like under det som regnes som tilfredsstillende når det gjelder domenet generell helse i SF-36. Cronbach's alpha på domenet generell helse, vil være avhengig av hvor sterk samsvar det er mellom svarene på spørsmålene innenfor dette domenet. Ettersom det også vil avhenge av hvor mange spørsmål som utgjør dette domenet (Fayers et al, 2007), vil en cronbach alpha under 0.70

ikke nødvendigvis indikere at instrumentet ikke er nøyaktig nok. Reliabilitetsstester fra denne studien, samt fra andre studier, tyder på at psykometriske egenskaper til instrumentene QoLS-N og SF-36 kan regnes som tilfredsstillende i henhold til reliabilitet.

4.2. Forhold ved denne studien som kan ha innvirkning på dataenes reliabilitet

Dataene fra studien gjenspeiler spørsmålene, og det er av betydning at spørsmålene i skjemaene er tydelige og lette å forstå. Uklare og vanskelige spørsmål, kan bidra til at respondenter unnlater å svare eller gir svar som avviker fra sannheten. Eksempler på dette i denne studien kan være spørsmål nr 4 ” ha og oppdra barn” i QoLS-N. Respondenter som ikke har barn i denne studien har lurt på hvordan de skal svare på dette, til tross for muntlig og skriftlig informasjon i forbindelse med utfylling av skjema. I andre undersøkelser har dette vært et spørsmål mange respondenter uten barn har unnlatt å svare på (Liedberg et al, 2005). Dette kan tyde på at det ikke er tydelig for respondentene hvordan dette spørsmålet skal forstås.

På samme måte kan det ifølge Fayers et al (2007) også være uklart hva respondentene skal svare på spørsmål 3 a i SF-36 der de blir spurt om helsen er til hinder for at de kan delta i anstrengende aktiviteter. Hvis de aldri deltar i anstrengende aktiviteter, vet de ikke om helsen er til hinder. I forbindelse med samme spørsmål kan også være vanskelig for respondentene å vite hva en skal svare, hvis en kun har problemer med en av flere aktiviteter som blir nevnt samtidig i samme spørsmål.

Uklare spørsmål eller spørsmål det er vanskelig å svare på kan virke inn på reliabiliteten, da det kan medføre at en ikke får ”sanne” data. Dersom respondentene misforstår spørsmålet, kan det kunne gi en ”gal” skår. I hvilken grad respondenter har misforstått spørsmålet og følgelig gitt galt svar, er vanskelig å svare på. Hvis respondentene unnlater å svare på enkelte spørsmål, vil delskåren på disse spørsmålene bli basert på skåren fra resten av skjemaet. I denne studien er det lite missing, slik at det er få delskårer som er basert på resultatet fra resten av skjemaet. Missing indikerer at respondentene har unnlatt å krysse av på spørsmål. Ved spørreskjemaet SF-36 har det vært missing på 1 spørsmål ved 9 spørreskjemaer, 1 skjema hadde missing på 2 spørsmål, og 1 skjema hadde missing på 3 spørsmål. Disse missingene i spørreskjemaene ble omkodet ved hjelp av syntax til SF-36. Ved spørreskjemaet QoLS-N, hadde en pasient krysset av 2 alternativer ved 2 av spørsmålene. Det ble da valgt konsekvent å registrere det dårligste alternativet. Videre

hadde to av respondentene missing på ett spørsmål. Dette er blitt kodet slik at scoren ble satt til gjennomsnittet av respondentens totalskår på spørreskjemaet. Missing på spørreskjemaene var jevnt fordelt blant kontroller og respondenter.

I studien sammenlignes pasientgruppen med en kontrollgruppe. De aller fleste pasienter med JDM er med i studien. I kontrollgruppen ønsket 32% av de som ble spurt, å delta. Det ligger en selvutvelgelse i det å si ja til å være med i et prosjekt, og kontrollpersonene som ønsker å delta kan ha egenskaper som skiller seg fra de som ikke ønsker å delta. Dette kan medføre systematiske målefeil hvis respondentene som gruppe ikke representerer den gruppen de skal representere. Jeg kan ikke vite i hvor stor grad kontrollene som deltar skiller seg fra de som ikke ønsker å delta. For å se nærmere på om kontrollpersonene er representative for "normalbefolkningen", har jeg sett på data fra Statistisk sentralbyrå vedrørende utdanning og inntekt. Ved øyesyn er både utdanningsnivået og årlig inntekt til kontrollene sammenlignbare med den norske befolkning relatert til alder (statistisk sentralbyrå, 2009). Når det gjelder sivilstatus er det flere samboere/gifte blant kontrollene enn gjennomsnittet i den norske befolkning, når en sammenligner dem i forhold til alder (statistisk sentralbyrå, 2009).

Idealisering der en tegner et forbedret bilde av seg selv kan gi utslag i systematiske målefeil, fordi det kan slå ulikt ut blant ulike grupper. Studier har vist at idealisering er mer utbredt blant folk med lav utdanning (Næss, 2001). Tall fra statistisk sentralbyrå viser at utdanningsnivået til både pasientene og kontrollene i denne studien er sammenlignbare med gjennomsnittet i Norge relatert til alder. Ifølge Mastekaasa vil tendensen til idealisering bli mindre dersom en sørger for at respondentene sikres anonymitet (Næss, Mastekaasa, Sørensen og Moum, 2001). Respondentene i studien er av praktiske årsaker ikke anonyme, noe som kan være med å påvirke respondentenes svar. Dataene ble imidlertid avpersonifisert, og alle respondentene fikk informasjon om dette, både skriftlig og muntlig. Demografiske data fra studien tilsier at respondentene i pasientgruppen og i kontrollgruppen er sammenlignbar som gruppe.

Ifølge Næss(2001) kan kortsiktige stemningsvariasjoner virke inn på hva den enkelte svarer i forhold til livskvalitet. Dette kan gi seg utslag i begge retninger, og kan derfor medføre tilfeldige målefeil. I en studie der det spørres etter subjektive opplevelse av livskvalitet og helse, er det naturlig at stemningsvariasjoner vil påvirke respondentenes subjektive opplevelse.

Flere forhold kan virke inn på hva respondentene svarer i en studie som denne. Enkelte kan ha en tendens til å være enige i påstander, og dette vil kunne medføre målefeil (Wahl et al, 2004). I SF-36 har en forsøker å motvirke dette ved måten spørsmålene er formulert på. I spørsmål 11 skal en for eksempel være enig eller uenig i påstander som ”det virker som om jeg blir lettere syk enn andre” og ”jeg er like frisk som de fleste jeg kjenner”. Enkelte kan også ha en tendens til å svare midt på skalaen i et spørreskjema eller ha en tendens til å være fornøyd uansett. Dette kan også medføre målefeil (Wahl et al,2004).

For pasientene som er med i en studie som denne, kan tilknytning til behandlingsstedet være av betydning for hvordan de svarer på spørreskjemaene. Pasienten i denne studien har imidlertid ingen pasienttilknytning til avdelingen pr i dag. Etter fylt 18 år blir pasientene fulgt opp ved ulike revmatologiske avdelinger rundt i landet.

Livskvalitet blir i studien målt subjektivt ved hjelp av spørreskjema, Flere forhold som kan være av betydning for om svarene som fremkommer er valide. I praksis er det umulig å gjennomføre en studie uten målefeil. Imidlertid vil standardisering av målingsprosedyren kunne redusere målingsfeilene (Kleven, 2002). Dette er gjort i denne studien ved hjelp av standardiserte spørreskjema, og at respondenten i studien har fylt ut skjemaet på sykehuset under like forhold. Videre har alle respondentene fått lik informasjon fra samme person.

4.3 Instrumentets validitet

Som tidligere nevnt kan validitet betegnes som dataenes relevans for problemstillingen i undersøkelsen. Det handler altså om det som faktisk måles er det som vi ønsker å måle basert på problemstillingen (Hellevik, 2002). Det finnes ulike typer av validitet som bør vurderes i relasjon til en studie som denne, for å se om instrumentene måler det en forventer at de skal måle. Livskvalitet er et begrep som kan defineres på ulike måter og kan romme ulike dimensjoner, og det er naturlig å se nærmere på innholdsvaliditet og begrepsvaliditet.

4.3.1. Innholdsvaliditet

Innholdsvaliditeten sier noe om i hvilken grad operasjonaliseringen av begrepet vi skal måle, fanger opp aspektene i den teoretiske definisjonen (Hellevik, 2002). Ved QoLS er innholdsvaliditeten blitt testet ved at innholdet i QoLS er blitt sammenlignet med hva amerikanere med kroniske lidelser i en studie synes var viktig ifht deres livskvalitet. (Burckhardt, Woods, Schultz og Ziebarth, 1989; Burckhardt, Anderson, Archenholtz og Hägg, 2003). Innholdsvaliditeten til SF-36 er vurdert ved å sammenligne innholdet i SF-36 med innholdet i andre lignende instrumenter. Samt sammenligne studier av ulike pasientgrupper (McHorney, Ware, Lu, og Sherbourne, 1994). Både SF-36 og QoLS er utviklet empirisk. Sf-36 med bakgrunn i hva ulike mennesker har svart i ulike studier, og QoLS med bakgrunn i hva 3000 mennesker i forskjellige alder og med ulik bakgrunn opplevde som viktig i livet. Innholdet i spørreskjemaene er dermed ikke tilfeldig valgte spørsmål, noe som styrker innholdsvaliditeten.

4.3.2. Begrepsvaliditet

Begrepsvaliditeten handler om hvor gode de operasjonelle målene er, og om de samsvarer med hvordan vi har definert begrepene teoretisk (Hellevik, 2002). Begrepsvaliditeten til SF-36 og QoLS er blitt testet ved å sammenligne instrumentene med andre kjente instrumenter, der en har sett på sammenfallende og diskriminerende validitet. Ved sammenfallende validitet forventer en at forskjellig måter å måle det samme på skal korrelere. Ved diskriminerende validitet forventer en at målinger som forventes å ha liten grad av sammenheng, har liten grad av sammenheng (Fayers et al, 2005). Flere studier har testet begrepsvaliditeten til SF-36 (Sullivan, Karlsson og Ware, 1995; Linde, Sørensen, Østergaard, Hørslev-Petersen og Hetland, 2008). I en sammenligning av studier fra 10 land (Keller et al, 1998), har en sett på begrepsvaliditet av SF-36. Artikkelen konkluderer med at begrepsvaliditeten er god. Resultatet fra denne sammenligningen viser også at respondentene har lik oppfattelse av innholdet av SF-36 utover landegrensene. Begrepsvaliditeten til QoLS er også blitt testet i flere studier (Wahl et al, 1998; Burchhardt et al, 2003; Liedberg et al, 2005). Resultatene fra disse studiene gir inntrykk av at instrumentene har tilfredsstillende validitet.

4.4. Forhold ved denne studien som kan ha innvirkning på dataenes validitet

4.4.1. Dataenes innholdsvaliditet

Ifølge Polit og Beck (2008) vil det når en skal vurdere innholdsvaliditeten være aktuelt å spørre seg om hvor relevante spørsmålene i instrumentene er, sett i forhold til andre spørsmål en kan stille innenfor temaet livskvalitet. Begrepene livskvalitet og helse relatert livskvalitet kan inneholde mange dimensjoner og det er vanskelig å inkludere alle dimensjonene på samme tid i et instrument. Dermed vil ulike instrument fokusere på ulike dimensjoner av begrepet (Fayers et al, 2007).

Både QoLS og SF-36 er i utgangspunktet utviklet og testet i USA, og er senere blitt oversatt til norsk. Dette kan medføre at noe av spørsmål fra skjemaene ikke nødvendigvis er relevante i den kulturen de er blitt oversatt til (Gyatt, 1993). Vedrørende spørsmål 1 i QoLS-N kan for eksempel det norske trygdesystem bidra til at kronisk syke har en større økonomisk trygghet i Norge sammenlignet med USA, noe som kan påvirke hvor viktig økonomisk trygghet vil være. Spørsmålene i QoLS er også basert på hvilke områder i livet mennesker opplevde som viktig på slutten av 70 tallet, og det kan være mulig at andre områder kan oppleves som mer aktuelle i dag.

Hvilke områder som oppleves som viktig, og betydningen de ulike dimensjonene har for livskvalitet vil også variere fra person til person (Ferrans et al, 1985). Hva som er viktig i en periode av livet kan være mindre viktig i en annen periode. Definisjonen av livskvalitet i denne studien tar utgangspunkt i tilfredshet med ulike områder i livet som er viktig for respondentene. Respondentene i studien definerer imidlertid ikke selv hvilke områder som er viktige. Dette innebærer at respondentene i spørreskjemaet QoLS-N også svarer på hvor fornøyd de er i forhold til områder som de ikke nødvendigvis anser som viktige. I studien er 11(28 %) av pasientene under 25 år. Det er mulig at domenet 4 som omhandler det å ha og oppdra barn ikke vil oppleves som viktig for en del av respondentene. Hvor viktig de ulike domene oppleves, vil virke inn på hvordan en skårer på spørreskjemaet (Meeberg, 1993). Det er vanskelig å være misfornøyd med noe som en ikke opplever som viktig, og scorene fra hvert område vil likevel ha lik innvirkning på totalscoren når det gjelder QoLS.

JDM er en kronisk sykdom, og pasientene som er med i studien har hatt sykdommen i lang tid. En kan regne med at pasientene har varierende grad av symptomer på sykdom ved

undersøkelsestidspunktet. Et aktuelt spørsmål er om instrumentet jeg har valgt kan beskrive hvordan pasientene vurderer sin helserelevante livskvalitet. Domener av betydning for denne pasientgruppen bør være med, både når det gjelder pasienter som opplever seg som friske og de som har symptomer på aktiv sykdom.

Sykdommen JDM er blant annet preget av muskelsvakhet i proximal muskulatur. I SF-36 vil spørsmålene rundt fysisk funksjon kunne fange opp dette. Spesielt spørsmål 3 c, d og f. Tretthet er også et fremtredende symptom på aktivitet i sykdom JDM, og spørsmål 9 i SF-36 tar for seg dette. Det er områder som er aktuelle for pasienter med denne diagnosen som ikke blir berørt. For eksempel kan pasientene i aktiv fase av sykdommen ha problemer med å løfte hendene over hodet, og dermed kan det være vanskelig å gre håret sitt. Ingen av skjemaene jeg har benyttet inneholder spørsmål relatert til søvn, religion og seksualitet. Som allerede nevnt kan instrumenter som måler helserelevante livskvalitet inneholde mange ulike dimensjoner, og det vil alltid være dimensjoner instrumentet ikke vil fange. I relasjon til symptomene ved JDM (Feldman et al,2008), ivaretar SF-36 flere aktuelle områder.

Sykdomsspesifikke livskvalitetsskjema kan i mange tilfeller gi en bedre informasjon om spesielle konsekvenser av sykdom og symptomer, men slike skjema finnes ikke for denne pasientgruppen. På den andre siden gir det også mening å sammenligne livskvalitet til pasienter med friske kontroller, noe som lar seg gjøre ved bruk av generelle skjemaer. En må vurdere om andre generelle instrumenter ville inneholde flere dimensjoner av betydning for denne pasientgruppen, men jeg har ikke funnet noe som tyder på dette.

Bruk av 2 ulike skjemaer i denne studien bidrar til å dekke flere dimensjoner relatert til livskvalitetsbegrepet. Spørreskjemaet SF-36 tar opp spørsmål relatert til fysisk og mental helse og funksjon, mens QoLS-N ser på hvor fornøyd en er med 16 ulike dimensjoner i livet. Noen av temaene overlapper hverandre, og har ulik vinkling omkring samme tema. Der SF-36 spør om helsen begrenser en i forhold til ulike fysiske aktiviteter, blir en i QoLS spurt om hvor fornøyd en er med livet sitt i forhold til fysisk aktivitet og fritid.

I ulike studier vil ulike dimensjoner av begrepet bli innlemmet avhengig av hvilket instrument som tas i bruk. Instrumentene jeg har valgt i denne studien fanger ikke opp alle relevante dimensjoner av begrepene som skal måles, heller ikke i forhold til pasienter med JDM. De fanger imidlertid opp flere viktige dimensjoner for pasientgruppen som kan bidra

med kunnskap om hvordan voksne med JDM vurderer sin globale og helse relatert livskvalitet.

4.4.2. Dataenes begrepsvaliditet

Som tidligere nevnt handler begrepsvaliditeten om hvor gode de operasjonelle målene er, og om det er samsvar mellom begrepene på teori og måleplan (Hellevik, 2002). Om instrumentene måler det de skal måle er et viktig spørsmål når en skal vurdere kvaliteten på denne studien., og begrepsvaliditeten blir dermed viktig for kvaliteten på studien. Både instrumentenes reliabilitet og innholdsvaliditet vil være av betydning for om begrepsvaliditeten er god. Inneholder målingene mange tilfeldige feil, vil dette redusere begrepsvaliditeten og påvirke forskningsresultatene. Systematiske målefeilene kan også redusere begrepsvaliditeten fordi det kan medføre vi måler ting som hører til utenfor begrepet vi ønsker å måle, eller at vi får et skjevt bilde av det vi skal måle (Kleven, 2002). Begrepsvaliditeten kan imidlertid være dårlig selv om reliabiliteten på målingene er god. Samtidig vil en dårlig innholdsvaliditet, der mange relevante spørsmål mangler, også kunne påvirke begrepsvaliditeten og resultatet i studien.

Begrepet livskvalitet kan operasjonaliseres på ulike måter. Ulike måter å operasjonalisere begrepet på, vil ha ulike fellestrekk og overlape hverandre på forskjellige områder. Livskvalitet og helse relatert livskvalitet er begreper som ikke er direkte målbare. Når en måler begreper som ikke er direkte målbare, vil våre begreper ifølge Kleven (2002) romme et innhold som operasjonaliseringen ikke greier og ivareta. Samtidig som operasjonaliseringen vil kunne få med noe som er irrelevant for begrepet vi er interessert i (Kleven, 2002). Følgende modell (figur 1) illustrerer hvordan spørreskjemaene i undersøkelsen kan tenkes å måle deler av livskvalitetsbegrepet i denne studien.

Figur 1 Operasjonalisering av begrepene i studien

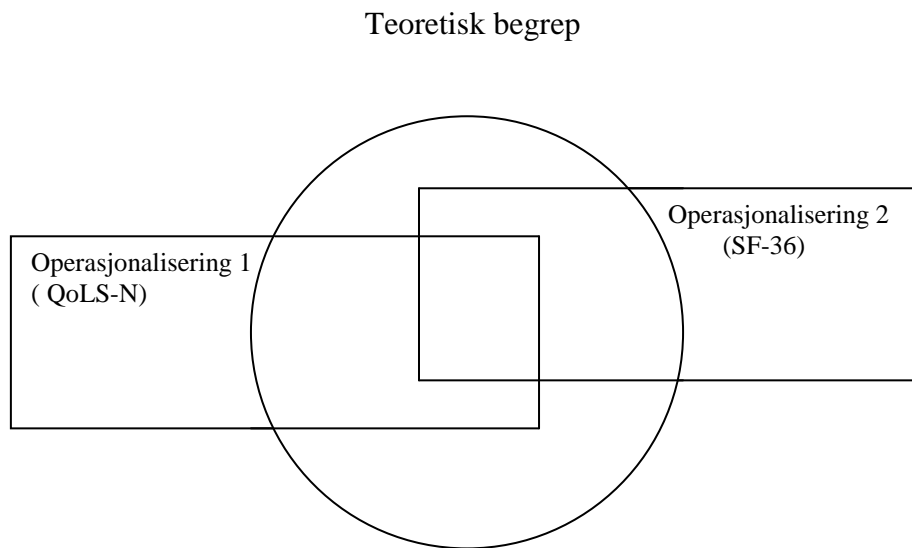


Fig 1: Modellen viser hvordan valgte måleinstrumenter (rektangler) favner ulike dimensjoner av livskvalitet (sirkelen), men videre at livskvalitet også kan inneholde andre aspekter som ikke fanges opp av studien. Modellen er basert på Kleven sin modell (Kleven, 2002, s. 152).

I hvilken grad variablene (livskvalitet og helse relatert livskvalitet) som vi ikke kan måle direkte blir reflektert og målt ved hjelp av den eller de variablene (spørsmålene i spørreskjemaene) vi måler direkte, er avgjørende for grad av begrepsvaliditet. En ønsker i størst mulig grad å måle relevante aspekter ved begrepene, og i så liten grad som mulig måle det som ikke er relevant. Jo mer abstrakt begrepet er, jo vanskeligere er det å vurdere begrepsvaliditeten (Polit et al, 2008). Vurdering av begrepsvaliditeten er en stadig pågående prosess der en over tid lærer mer om instrumentene (Fayers et al, 2005).

I forbindelse med skjemaet QoLS-N vurderer respondenten hvor fornøyd de er med 16 ulike områder i livet, og det er en trussel for validiteten at vi ikke vet om respondenten opplever disse områdene som viktige. Hvis områdene som blir vurdert ikke oppleves som viktig for respondentene, reduseres innholdsvaliditeten. Dette vil igjen redusere begrepsvaliditeten, fordi vi måler noe som ligger utenfor begrepet livskvalitet slik det er definert i den teoretiske definisjonen.

Begrepsvaliditeten vil avhenge av i hvor stor grad spørreskjemaene SF-36 og QoLS-N måler det de er tiltenkt å måle. Livskvalitet målt ved hjelp av QoLS-N basert på totalscoren fra spørreskjemaet viser at pasientene er like fornøyd med sin livskvalitet som kontrollgruppen,. Scorene på de ulike delscorene av QoLS-N viser imidlertid at pasientene er mindre fornøyd med sin helse og utdanning. De er også mer fornøyd med forholdet til foreldre, søsken og andre nære slektninger. Resultat basert på totalscoren alene, vil dermed ikke være et tilstrekkelig godt mål på hvordan respondentene vurderer sin livskvalitet. Totalscoren består av mange spørsmål innenfor ulike områder. Grupper som blir sammenlignet kan være mer eller mindre fornøyd i forhold til ulike områder, noe som vil bli utjevnet i en totalskår.

Ved spørreskjemaet SF-36 blir 8 domener summert sammen til to sluttskårer; fysisk helse (PCS) og mental helse (MCS). Studier har imidlertid vist at scoringssystemet som brukes for å gi totalskåren til PCS og MCS kan gi misvisende resultater (Nortvedt et al, 2000). Subdomenene er i varierende grad med i skåringssystemet som brukes for å skåre både PCS og MCS, og dataenes variasjonsbredde og gjennomsnittets standardavvik vil avgjøre hvordan de ulike domenen vektlegges i totalscorene MCS og PCS. (Nortvedt et al, 2000; Taft, Karlsson og Sullivan, 2001). Taft et al (2001) konkluderer med at de 8 helsedomenene i SF-36 bør regnes som valide og reliable men at sum skårene PCS og MCS kan gi feil informasjon i visse situasjoner og må derfor sees i sammenheng med skårene på de 8 domenenene. Dette handler om hvordan beregning av sluttskårene på QoLS-N og SF-36 i visse situasjoner kan gi misvisende resultatet. Beregning av totalskårene kan kamuflere den ”sanne” skår av det en ønsker å måle, og kan derfor virke inn på reliabiliteten og dernest begrepsvaliditeten. I resultatene presentert i artikkelen er derfor data vedrørende enkeltspørsmål på QoLS-N og de ulike domenenene av SF-36 tatt med. Dette styrker begrepsvaliditeten ved at det gir et mer nøyaktig bilde av det som måles.

Mange ulike forhold påvirker hvordan en vurderer sin egen livskvalitet. Ifølge Næss vurderer respondentene sin livskvalitet i forhold til noe, som igjen vil prege deres opplevelse av egen livskvalitet (Næss, Mastekaasa, Sørensen og Moum, 2001). Mennesker med kronisk sykdom har i studier rapporterer lik eller bedre livskvalitet enn friske mennesker eller mennesker med mindre alvorlig sykdom. En måte å forstå dette på kan være endring i respons (Rapkin og Swartz, 2004). Dette forklares med at mennesker over tid kan endre sine standarder, verdier og forståelse av livskvalitet og helse når de lever med en kronisk sykdom. En slik responsendring kan medføre underestimering av

forskjeller i QoL mellom kontrollgruppe og pasientgruppe. I studien er det liten forskjell på pasientene og kontrollene når det gjelder mange av dimensjonene eller temaene som spørreskjemaene tar for seg. Pasienter i studien har hatt sykdommen i flere år med varierende grad av sykdomsaktivitet. Det er nærliggende å tro at hvilken grad personene har justert seg til sin tilværelse vil påvirke deres vurdering av livskvalitet og helserelatert livskvalitet. Det kan medføre at en i studiet måler hvor godt pasientene har justert livet sitt i forhold til sin sykdom.

I studien er korrelasjonen mellom Sf-36 og QoLS-N sterkere for kontrollgruppen sammenlignet med pasientgruppen. Responsendring hos pasientene kan også være en mulig forklaring på dette.

QoLS er et globalt livskvalitetsinstrument mens SF-36 er et helserelatert instrument og en forventer derfor at disse instrumentene ikke skal måle det samme begrepet.

Spearman's test for korrelasjon ble brukt for å se hvor sterk korrelasjonen var mellom disse to skjemaene. Ifølge Cohen (1988) blir en korrelasjonskoeffisient på under 0.30 regnet som liten, og en korrelasjonskoeffisient på 0.30 – 0.50 regnet som middels. I denne studien er korrelasjon mellom QoLS-N og de 8 domene av SF-36 lav for pasientgruppen. Det er derfor nærliggende å tro at SF-36 og QoLS-N ikke måler det samme. En svak korrelasjon kan imidlertid også være tegn på at skjemaene er lite sensitive for pasientgruppen, og ikke fanger opp riktig informasjon. Pasienter med JDM scorer lavere på domenet generell helse i SF-36, og pasientene er også mindre fornøyd med sin helse i henhold til spørreskjemaet QoLS-N. Dette kan tyde på at instrumentene er sensitive i forhold til det de skal måle.

Ved å ta i bruk velbrukte standardiserte skjemaer som allerede er testet med tanke på validitet, er det større sannsynlighet for at begrepsvaliditeten i denne studien er tilfredsstillende. En må likevel løpende vurdere om måleinstrumentene virker fornuftige for denne pasientgruppen. Innenfor livskvalitetsforskning kan det ikke bevises at måleinstrumentene er valide, og validitetsprosessen vil bestå i å skaffe flere bevis for at skalaene ser ut til å måle det en forventer de skal måle (Fayers et al, 2007).

5. KONKLUSJON

I studien har jeg søkt å gjøre et pålitelig forskningsarbeid ved å følge vitenskapelige prinsipper når det gjelder gjennomføring av studien "livskvalitet til pasienter med Juvenil Dermatomyositt". Jeg har i studien forsøkt å ivareta dataenes validitet og reliabilitet på en best mulig måte, slik at resultatene fra denne studien kan ansees som gyldige.

Det er en fordel at instrumentene jeg har valgt å bruke i studien tidligere er testet med tanke på validitet og reliabilitet blant ulike pasientgrupper i ulike studier, og funnet å være tilfredsstillende. Det er imidlertid viktig at instrumentene er valide og reliable også i forhold til denne pasientgruppen.

Det vil alltid forkomme tilfeldige målefeil i en studie som denne. Uklare spørsmål kan være forhold ved måleinstrumentene som kan medføre målefeil, og ved respondentene kan målefeil for eksempel komme av at en gir et annet bilde av seg selv enn det som er riktig. I denne studien er det likevel ingenting som tyder på at reliabiliteten ikke er tilfredsstillende. Måling av livskvalitet og helse relatert livskvalitet ved hjelp av SF-36 og QoLS-N har begrensninger i forhold til validitet. En får kun belyst de dimensjonene som instrumentene tar for seg, og den enkelte vil legge forskjellige innhold i det de blir spurt om. Det er min vurdering at dataene fra denne studien er valide, til tross for disse begrensningene.

Begrensningene medfører imidlertid et behov for flere studier, både kvantitative og kvalitative studier. Kvantitative studier med bruk av ulike måleinstrumenter, kan belyse andre dimensjoner innenfor livskvalitet og helse relatert livskvalitet. En vil da få belyst flere sider av livskvalitet til denne pasientgruppen.

Ved hjelp av kvalitative studier kan en gå mer i dybden av pasienters opplevelse av å leve med sykdommen JDM som voksen, og på den måten fange opp dimensjoner av betydning for pasientene. En økt kunnskap om hvilke dimensjoner som er viktige for denne pasientgruppen, vi kunne styrke innholdsvaliditeten i fremtidige studier rettet mot denne pasientgruppen.

REFERANSELISTE

- Barnett, M. (2005). Chronic obstructive pulmonary disease: a phenomenological study of patients' experiences, *Journal of clinical Nursing*, 14, 805 – 812.
- Burckhardt, C.S., Woods, S.L., Scultz, A.A. og Ziebarth, D.M. (1989). Quality of Life of adults with chronic illness: A psychometric study. *Research in Nursing and Health*, 12, 347 – 54.
- Burckhardt, C. B, Archenholtz, B. and Bjelle, A (1992). Measuring the quality of life of woman with rheumatoid arthritis or systemic lupus erythematosus. A Swedish version of the Quality of Life Scale (QoLS). *Scandinavian Journal of Rheumatology*, 21(4), 190 – 195.
- Burckhardt, C.S. og Anderson, K.L. (2003). The Quality of Life Scale (QOLS): reliability, validity, and utilization. *Human Quality of Life Outcomes*, 1, 60- 67.
- Burckhardt, C.S, Anderson, K.L., Archenholtz, B. og Hägg, O. (2003). The Flanagan Quality of Life Scale: evidence of construct validity. *Health and Quality of Life Outcomes*, 1, 59 – 66.
- Burckhardt, C.S. og Jones, K.D. (2005). Effects of chronic widespread pain on the health status and quality of life of woman after breast cancer surgery. *Health and Quality of Life Outcomes*. 3, 30
- Brazier, J.E (1992) validating the SF-36 Health Survey Questionnaire- New Outcome Measure for *Primary care*. *British Medical Journal*. 305(6846). 160 – 164.
- Cohen, J. (1988). *Statistical power analysis for the behavioural science*. (2nd.ed). Hillsdale, NJ: Lawrence Erlbaum Associates.
- Fayers, P.M., Hand D.J., Bjordal, K og Groenvold, M. (1997). Casual indicators in quality of life research. *Quality of Life Research*. 6, 393 – 406.
- Fayers, P.M. og Hays, B.K. (2005). *Assesing Quality of life in Clinical Trials, Methods and Practice*. (2.nd.ed). Oxford, Oxford University Press.
- Fayers, P.M. og Machin, D. (2007) *Quality of life, The Assessment, Analysis and Interpretation of Patient-Reported Outcomes*. (2.nd. ed.) Chichester, Wiley.
- Feldman, B.M., Rider, L.G., Reed, A.M. og Peckman, L.M. (2008). Juvenile dermatomyositis and other idiopathic inflammatory myopathies of childhood. *Lancet*, 371(9631), 2201 – 2212.
- Ferrans, C.E. (1990). Development of a quality of life index for patients with cancer. *Oncology Nursing Forum*, 17, 15-24.

- Ferrans, C.E. og Powers, M.J. (1985). Quality of Life Index – Development and Psychometric Properties. *Advances in Nursing Science*. 8(1), 15 – 24.
- Flanagan, J.C.(1978). Research Approach to Improving Our Quality of Life. *American Psychologist*. 33(2), 138-147.
- Gyatt, G.H. (1993). The philosophy of Health-Related Quality-Of-Life Translation. *Quality of Life Research*. 2(6), 461 – 465.
- Heberman, M.R. og Bush, N.(2003). Quality of life Methodological and Measurement Issues. I. King, C.R. og Hinds, P.S. Quality of Life. From Nursing and Patients Perspective.(2.nd.ed). Sudbury, MA. Jones and Bartlett Publishers.
- Hellevik, O.(2002). Forskningsmetode i Sosiologi Og Statsvitenskap.7.utg. Oslo. Universitetsforlaget.
- Huber, A.M., Lang, B., LeBlanc, C.M.A., Birdi, N., Bolaria, R.K., Malleson, P., Macneil, I., Momy, J., Avery, G. og Feldman, B.M.(2000), Medium- and Long-term functional outcomes in a multicenter cohort of children with juvenile dermatomyositis. *Arthritis and Rheumatism*, 43(3), 541 – 549.
- Haas, B.K.(1999). Clarification and integration of similar quality of life concepts. *Image: Journal of Nursing Scholarship*. 31(3), 215-220.
- Keller, S.D., Ware, J.E., Bentler, P.M., Aaronson, N.K., Alonso, J., Apolone, G., Bjørner J.B., Brazier, J., Bullinger, M., Kaasa, S., Leplège, A., Sullivan, M. og Gandek, B. (1998). Use of Structural Equation Modeling to Test the Construct Validity of the SF-36 Health Survey in Ten Countries: Results from the IQOLA Project. *Journal of Clinical Epidemiology*. 51(11), 1179 – 1188.
- King, C.R. og Hinds, P.S.(2003). Quality of life. From nursing and patients perspective. 2nd.ed. Massachusetts, Jones and Bartlett Publishers.
- Kleven, T.A. Begrepsoperasjonalisering. I Lund, T, Kleven T.A., Kvernbekk, T og Christophersen K.A. (2002). Innføring i Forskningsmetodologi. Oslo: Unipub.
- Liedberg, G.M, Burckhardt, C.S. og Henriksson, C.M.(2005). Validity and reliability of the Quality of Life Scale, Swedish version in woman with fibromyalgia - statistical analysis. *Scandinavian Journal of Caring Sciences*. 19(1), 64 – 70.
- Linde, L., Sørensen, J., Østergaard, M., Hørslev-Petersen, K. og Hetland, M.L. (2008). Health-Related quality of life: validity, reliability and responsiveness of SF-36, 15D, EQ-5D(connected) RAQoL, and HAQ in patients with rheumatoid arthritis. *Journal of Rheumatology*. 35(8), 1528 – 1537.

- Loge, J.H. og Kaasa, S. (1998). Short Form 36(SF-36) health survey: normative data from the general Norwegian population. *Scandinavian Journal of Social Medicine*, 26(4), 250 – 258.
- Laake, P. Og Benestad, H.B. (2004). *Forskningsmetode i Medisin og Biofag*. Oslo, Gyldendal akademisk.
- McHorney, C. A., Ware, J.E.Jr., Lu, J.F. and Sherbourne, C.D.(1994). The MOS 36-item Short-Form Health Survey (SF-36): III. Tests of data quality, scaling assumptions, and Reliability across diverse patient groups. *Medical Care*, 32(1), 40 – 66.
- Meeberg, G.A. (1993). Quality-Of-Life – A Concept Analysis. *Journal of advanced Nursing*, 10(1), 32 – 38.
- Nordtvedt, M.W., Riise, T., Myhr, K.M. og Nyland, H.I. (2000). Performance of the Sf-36, SF-12, and RAND-36 summary scales in a multiple sclerosis population. *Medical care*, 38(19), 1022 – 1028.
- Mastekaasa I ; Næss, S., Mastekaasa, A, Sørensen,T og Moum.T. (2001). Livskvalitet som psykisk velvære, Nova- rapport 3. Oslo, Norsk institutt for forskning om oppvekst, velferd og aldring.
- Næss, S., Mastekaasa, A, Sørensen,T og Moum.T. (2001). Livskvalitet som psykisk velvære, Nova- rapport 3. Oslo, Norsk institutt for forskning om oppvekst, velferd og aldring.
- Næss, S. (2001). Livskvalitet som psykisk velvære. *Tidsskrift for Den norske legeförening*, 16, 121 – 128.
- Padille, G.V. og Grant, M.M. (1985). Quality of life as a cancer nursing outcome variable. *Advances in Nursing Science*, 8(1), 45 – 60.
- Polit, D.F. og Beck, C.T. (2008), *Nursing Research, Generating and Assessing Principles for Nursing Practice*.(8.utg). Philadelphia, Lippincott Company.
- Prouty, D., Ward-Smith, P and Hutto, C.J. (2006). The lived experience of adults survivors of childhood cancer. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*.23, 143 – 151.
- Rapkin, B. D. and Schwartz, C. E. (2004). Toward a theoretical model of quality-of-life appraisal: Implications of findings from studies of response shift. *Health and Quality of Life Outcomes*.2,14 – 26.
- Spilker, B.(1996). *Quality of Life and Pharmacoeconomics in Clinical Trials*. 2.nd ed. Philadelphia, Lippincott-Raven.
- Statistisk sentralbyrå.(utdannelse):
<http://ssb.no/utniv/tab-2009-08-25-03.html>

Statistisk sentralbyrå (lønn):

http://ssb.no/statistikkbanken/Default_FR.asp?PXSid=0&nvl=true&Planguage=0&ti1side=selectable/hovedtabellHjem.asp&KortnavnWeb=lonnansatt

- Sullivan, M., Karlsson, J. Og Ware, J.E. (1995). The Swedish SF-36 Health Survey. Evaluation of Data Quality, Scaling Assumptions, Reliability and Constructvalidity across General Populations in Sweden. *Social Science & Medicine*, 41(10), 1349 – 1358.
- Taft, C., Kalsson, J. Og Sullivan, M. (2001). Do Sf-36 summary component scores accurately summarize subscale scores? *Quality of Life Research*. 10(5), 395 – 404.
- Tatarkiewicz, W. (1976). Analysis of Happiness. Martinus Nijhoff.
- Wahl, A.K., Burckhardt, C.S., Wiklund, I. og Hanestad, B.R. (1998). The Norwegian version of the Quality of Life Scale(QoLS-N). A validation and reliability study in patients suffering from psoriasis. *Scandinavian Journal of Caring Science*. 12(4). 215-222.
- Wahl (1998). The Norwegian version of the Quality of Life Scale(QoLS-N). A validation and reliability study in patients suffering from psoriasis. *Scandinavian Journal of Caring Science*. 12(4), 215 - 222.
- Wahl, A.K. og Hanestad, B.R. (2004). *Måling av livskvalitet i klinisk praksis*. Oslo, Fagbokforlaget.
- Ware, J.E.JR. (2003) SF-36 health survey update. *Spine*. 25(24), 3130-3139.
- Ware, J.E.W.Jr, Kosinski, M. og Gandek, B. (2005). SF-36 Health Survey. Manual & Interpretation Guide, Boston MA, New England Medical Centre.
- World Health Organization. (1948) Official Records of the World Health Organization NO.2. Genova: WHO.