

The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report (JAMAR); et nytt selvrapporteringsverktøy ved barneleddgikt.

*I hvilken grad er det samsvar mellom hva pasienter med
barneleddgikt rapporterer og det deres foreldre rapporterer ved
bruk av den norske versjonen av JAMAR.*

Mona Røisland



Masteroppgave i Helsefagvitenskap

Institutt for Helse og Samfunn

Det Medisinske Fakultet

UNIVERSITETET I OSLO

Juni 2016

© Forfatter: Mona Røisland

År: 2016

Tittel: The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report (JAMAR); et nytt selvrappoteringsverktøy ved barneleddgikt.

Forfatter: Mona Røisland

<http://www.duo.uio.no/>

Trykk: Reprosentralen, Universitetet i Oslo

Sammendrag

Formål: Studiens formål var å se på i hvilken grad det er samsvar mellom hva barn med barneleddgikt og det deres foreldre rapporterer ved bruk av den norske versjonen av The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report (JAMAR).

Teoretisk forankring: Studien er teoretisk forankret i relevante studier på foreldre/pasient rapportert utkomme (PRO) og helserelatert livskvalitet (HRQoL) samt andre studier på JAMAR.

Metode: 52 pasient/foreldre-par deltok i studien. Pasientene har barneleddgikt, er mellom 12 og 18 år og går til kontroller og behandling på Oslo universitetssykehus. Pasientene og foreldrene fylte ut hver sin utgave av skjemaet. For pasientene ble demografiske og sykdomsspesifikke data registrert, og i tillegg, foreldrenes kjønn. Studien har sett på grad av samsvar på JAMARs kvantitative delkomponenter; smerte, sykdomsaktivitet og velbefinnende ved visuell analog skala (VAS), fysisk funksjon ved Juvenile Arthritis Functionality Scale (JAFS) og livskvalitet ved Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale (PRQL) sum skår og delskår for fysisk helse (PRQLPhH) og psykososial helse (PRQLPsH). I tillegg er det sett på i hvilken retning skåringene går samt om pasientens kjønn, alder, sykdomsvarighet eller legens vurdering av sykdomsaktivitet påvirker grad av samsvar. Intraklasse-korrelasjonskoeffisienten ICC og Bland Altman-plott er brukt for analysene samt paret og uavhengig t-test.

Resultater: 38 (73%) av pasientene var jenter, median alder 15 år og legens VAS for sykdomsaktivitet median 1. Pasientenes og foreldrenes median skår var lik på fire av syv delkomponenter og tilnærmet lik på tre. Korrelasjonen var signifikant for alle variabler ($p < 0.001$) og styrken varierte fra ICC 0.616 for Livskvalitet psykososial helse til best korrelasjon for Smerte med ICC 0.936. Differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår viser at foreldrene tenderer til å rapportere mer plager, redusert funksjon og livskvalitet enn pasientene på seks av syv delkomponenter med mean (SD) fra -0.08 (1) til -0.79 (3,3). Pasientenes kjønn påvirket samsvar for Velbefinnende ($p=0.035$), pasientens alder påvirket samsvar for Smerte og Sykdomsaktivitet ($p=0.003$ og 0.031) og Legens vurdering av sykdomsaktivitet påvirket samsvar for Smerte ($p=0.003$).

Konklusjon: Studien viser at det er godt samsvar mellom respondentene ved bruk av JAMAR, men at styrken på samsvaret varierer noe mellom delkomponentene. Foreldrene tenderer til å rapportere mer plager, redusert funksjon og livskvalitet enn pasientene og det er antydning til at både kjønn, alder og grad av sykdomsaktivitet vurdert av lege kan påvirke grad av samsvar. Resultatene viser at både pasientenes og foreldrenes rapportering er viktig som grunnlag for ivaretagelse av begge grupper.

Nøkkelord: juvenile idiopatisk artritt, JIA, foreldre/pasient rapportert utkomme, PRO, proxy-rapportering, helserelatert livskvalitet, HRQoL, fysisk funksjon, JAMAR

Abstract

Objectives: The aim of this study was to analyze the degree of agreement between patients with Juvenile Idiopathic Arthritis (JIA) and their parents on disease perception using the Norwegian version of The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report (JAMAR).

Literature review: Theoretically the study is based on relevant studies on parent/patient reported outcome (PRO) and Health Related Quality of Life HRQoL.

Methods: 52 patient/parent dyads participated in the study, the patients were between 12 and 18 years, and are treated at Oslo University Hospital. Both patients and parents completed the JAMAR questionnaire. For each patient demographic and disease specific data were recorded, and the parents sex. The study examined the level of agreement for the seven quantitative items in JAMAR; Pain, Disease Activity and Well Being using VAS, Juvenile Arthritis Functional Score (JAFS) and HRQoL with Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale (PRQL) total score and the sub dimensions physical health (PRQLPhH) and psychosocial health (PRQLPsH). Then I analyzed the direction of the differences in scores and investigated if sex, age, disease duration and disease activity can affect the degree of agreement. Intraclass correlation coefficient ICC and Bland and Altman plot were used for analysis together with paired and independent t-test.

Results: Median age for patients were 15 years, 38 (73%) were girls and Physicians' global median 1. Patients and parents median score were similar for four of seven items and nearly similar for three items. Correlations were significant for all items ($p < 0.001$) and the strength varied from ICC 0.616 for psychosocial health to strongest correlation for Pain with ICC 0.936. The difference between patients and parents score show that the parents tend to report more discomfort, reduced physical function and HRQoL than the patients for six of seven items, mean (SD) from -0.08 (1) to -0.79 (3,3). Patient's sex influenced agreement on Wellbeing ($p = 0.035$), age influenced agreement on Pain and self-reported Disease activity ($p = 0.003$ and 0.031) and Physicians global assessment of disease activity influenced on Pain ($p = 0.003$)

Conclusion: The study shows that there is good agreement between patients and parents using JAMAR for PRO and HRQoL-report, but the strength of the agreement varies between the items. The parents report more discomfort and reduced physical function and HRQoL than the patients and that sex, age and physicians global tend to affect the strength of the agreement. These results underline the importance that both patients and parents should fill in the questionnaire for adequate clinical assessment.

Keywords: Juvenile Idiopathic Arthritis, JIA, parent/patient reported outcome, PRO, proxy report, health-related quality of life, HRQL, physical function, JAMAR

Forord

Dette har vært en innholdsrik og lærerik reise, akkurat det jeg var ute etter! Som leder for Nasjonal kompetansetjeneste for barne- og ungdomsrevmatologi har jeg vært involvert i en del forskning på den administrative siden, men har savnet mer formell kunnskap om og egenerfaring med forskning. Takket være mange har jeg nå fått det!

Først takk til mine ledere ved seksjon for revmatologi, hud- og infeksjonssykdommer på Oslo universitetssykehus, Jorunn Hagen Rønsen og Inge-Margrethe Gilboe, som støttet mitt ønske om en deltids master i Helsefagvitenskap. Jeg håper jeg har tilegnet meg kunnskap som avdelingen kan ha nytte av i mange år.

Undervisningstiden på Institutt for Helse og Samfunn ser jeg tilbake på som en veldig god tid. Jeg opplevde å være et sted med stor kompetanse, gode og imøtekommende lærere og veldig hyggelige medstudenter. Jeg savner den tiden!

Uten pasientenes og deres foreldres store tålmodighet med vår iver etter å innhente deres opplevelser og erfaringer hadde jeg ikke hatt data å bygge denne besvarelsen på. En stor takk til alle!

Takk også til legene på Enhet for barne- og ungdomsrevmatologi, Rikshospitalet - OUS, for innsamling av data i en veldig travel klinisk hverdag, samt til prosjektsykepleier Hanne Beate Ødegaard!

Arbeidet med selve masteroppgaven har vært et kapittel for seg; krevende, morsomt og lærerikt. En stor takk til veileder overlege Anne Marit Selvaag for hennes imøtekommenhet, fleksibilitet og grundige og raske tilbakemeldinger!

Takk også til Pediatric Rheumatology International Trials Organization (PRINTO), som har utviklet The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report (JAMAR), for deres utrettelige internasjonale arbeid for å utvikle og formidle kunnskap om revmatiske sykdommer hos barn.

Til slutt en varm takk til kollegaer, venner og familie for alle heiarop!

Oslo 25.5.2016

Mona Røisland

Innholdsfortegnelse

Sammendrag.....	III
Abstract.....	V
Forord.....	VII
Innholdsfortegnelse.....	VIII
Tabeller.....	X
Figurer.....	XI
Forkortelser.....	XII
1 Innledning.....	1
1.1 Bakgrunn for oppgaven.....	1
1.2 Hensikten med studien.....	4
1.3 Problemstilling.....	4
1.4 Oppbygging og avgrensing av besvarelsen.....	5
1.5 Begrepsavklaring.....	6
2 Teoretisk bakgrunn.....	8
2.1 Om barneleddgikt (Juvenil idiopatisk artritt - JIA).....	8
2.1.1 Klassifisering.....	8
2.1.2 Etiologi og epidemiologi.....	9
2.1.3 Behandling og prognose.....	10
2.2 Om foreldre/pasient-rapportert utkomme (PRO) og "the-proxy-problem" i barnerevmatologien.....	12
2.3 The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report – JAMAR.....	14
2.4 Måleverktøyene i JAMAR.....	16
2.4.1 Visuell Analog Skala - VAS.....	16
2.4.2 Juvenile Arthritis Functionality Scale - JAFS.....	18
2.4.3 Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale – PRQL.....	19
2.5 Childhood Health Assessment Questionnaire - CHAQ.....	20
3 Metode.....	22
3.1 Design.....	22
3.2 Utvalget.....	22
3.2.1 OUS' valideringsstudie av JAMAR.....	22

3.2.2	Aktuelle studies utvalg	23
3.3	Innhenting av data	24
3.4	Variabler	25
3.5	Analyser	28
3.6	Etiske hensyn	30
4	Resultater	31
4.1	Utvalget – demografiske og sykdomsspesifikke karakteristika	31
4.2	Pasientenes og foreldrenes skår	32
4.3	Ulike mål for samsvar og resultater	40
4.3.1	Grad av samsvar	40
4.3.2	Retningen på skåringene	43
4.3.3	Hva påvirker grad av samsvar	43
5	Diskusjon	46
5.1	En reliabilitets-studie?	47
5.2	Diskusjon av metoden	48
5.2.1	Design	48
5.2.2	Utvalget	49
5.2.3	Innhenting av data	50
5.2.4	Variablene	50
5.2.5	Analyser	51
5.2.6	Etiske betraktninger	52
5.3	Diskusjon av resultatene	53
5.3.1	Utvalget	53
5.3.2	Skåringene	54
5.3.3	Grad av samsvar	56
5.3.4	Retningen på skårene	58
5.3.5	Hva påvirker samsvaret	58
5.3.6	Avsluttende betraktninger	60
6	Konklusjon	62
	Referanser	63
	Vedlegg	69

Tabeller

Tabell 1. Beskrivelse av studiens avhengige variabler, de syv valgte delkomponentene av JAMAR	27
Tabell 2. Demografiske og sykdomsspesifikke karakteristika	31
Tabell 3. Oversikt over pasientenes og foreldrenes skår for valgte delkomponenter av JAMAR samt gjennomsnitt for differansen	38
Tabell 4. Grad av samsvar mellom pasientenes og foreldrenes skår ved intraklasse-korrelasjonskoeffisienten ICC	40
Tabell 5. Differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår i forhold til pasientens kjønn, alder ved undersøkelse, sykdomsvarighet og legens vurdering av sykdomsaktivitet	45

Figurer

Figur 1. 21-punkts VAS brukt for <i>Smerte</i> i JAMAR	17
Figur 2. 21-punkts VAS brukt for legens vurdering av sykdomsaktivitet	25
Figur 3. Boksplo over pasientenes og foreldrenes skår for <i>Fysisk funksjon sumskår</i>	33
Figur 4. Boksplo over pasientenes og foreldrenes skår for <i>Livskvalitet psykososial helse</i>	33
Figur 5. Histogram over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for selvrappoert <i>Sykdomsaktivitet</i>	34
Figur 6. Histogram over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for <i>Livskvalitet sumskår</i>	34
Figur 7. Boksplo over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for selvrappoert <i>Sykdomsaktivitet</i>	35
Figur 8. Boksplo over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for <i>Fysisk funksjon sumskår</i>	35
Figur 9. Boksplo over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for <i>Livskvalitet fysisk helse</i>	36
Figur 10. Boksplo over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for <i>Livskvalitet psykososial helse</i>	36
Figur 11. Oversikt over gjennomsnittet for pasientenes og foreldrenes skår på valgte delkomponenter av JAMAR ved søylediagram	39
Figur 12. Bland Altman-plot over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for <i>Smerte</i> mot gjennomsnittet av begge skår der graden av samsvar er god (skala 0-10)	41
Figur 13. Bland Altman-plot over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for <i>Velbefinnende</i> mot gjennomsnittet av begge skår der graden av samsvar er moderat (skala 0-15)	42

Forkortelser

ADL	Activity of Daily Living
CHAQ	Childhood Health Assessment Questionnaire
CHQ	Child Health Questionnaire
HAQ	Stanford Health Assessment Questionnaire
HRQoL	Health Related Quality of Life
ICC	Intraklasse-korrelasjonskoeffisient
ILAR	International League of Associations for Rheumatology
JAFS	Juvenile Arthritis Functionality Scale
JAMAR	The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report
JAQQ	Juvenile Arthritis Quality of Life Questionnaire
JCA	Juvenil kronisk artritt
JIA	Juvenil idiopatisk artritt
JRA	Juvenil revmatisk artritt
PEDsQL	Pediatric Quality of Life Inventory
PRINTO	Pediatric Rheumatology International Trials Organization
PRO	Parent/patient reported outcome
PRQL	Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale
PRQLPhH	Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale Physical Health
PRQLPsH	Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale Psychosocial Health
REK	Regional Etisk Komité
VAS	Visuell analog skala
WHO	Verdens helseorganisasjon

1 Innledning

1.1 Bakgrunn for oppgaven

Innen pediatrien kan man, noe forenklet, si at fokus har skiftet fra å sette de riktige diagnosene og håndtere infeksjonssykdommer til forebygging av og kontroll med kroniske tilstander (1). En av årsakene til dette kan være at perspektivet på helse og sykdom har endret seg fra at definisjonsmakten lå hos medisinske fagpersoner, til gradvis også å innlemme pasient/foreldre-perspektivet.

Verdens helseorganisasjon (WHO) definerer helse som en tilstand av fullstendig fysisk, mentalt og sosialt velvære og ikke bare fravær av sykdom og lyte. Dette er en definisjon som favner vidt og fordrer helse og sykdom vurdert ut ifra flere ulike ståsteder. For blant annet å være i tråd med WHO's definisjon, utvikles stadig nye helserelaterte kartleggingsverktøy der pasientens og foreldrenes opplevelse av situasjonen kan komme til uttrykk. Dette er viktige bidrag når helsepersonell skal planlegge tiltak og oppfølging, og kan øke kvaliteten på ivaretagelsen av pasientene (2-5).

Innen medisinsk forskning benyttes i dag ulike selvrapporteringskjemaer for å kartlegge foreldre/pasient rapportert utkomme (parent/patient reported outcome, PRO), inkludert helserelatert livskvalitet (Health Related Quality of Life, HRQoL), både generiske og diagnosespesifikke. Mange av disse kartleggingsverktøyene er basert på at det er en forelder som skal svare på vegne av barnet/ungdommen (proxy-rapportering). Studier viser at dette kan være problematisk. I hvor stor grad har foreldre innsikt i hvordan barna/ungdommene (heretter barna) deres har det? Er foreldre gode respondenter på vegne av sine barn? Dette problemet kalles i litteraturen for «the proxy problem» (6, 7). En australsk epidemiologisk generisk studie (n=2096 foreldre/ungdoms-par) som så på PRO-enighet i forhold til fysisk, emosjonell, mental og sosial helse samt generelt velbefinnende i en representativ populasjon (skolebarn 12-18 år), fant manglende enighet på flere områder samt at uenigheten økte hvis ungdommen hadde en sykdom. Studien konkluderte blant annet med at spesielt når det gjelder ungdom er det viktig at de selv, i tillegg til foreldrene, får rapportere om sin HRQoL (8).

Det er i nyere tid satt søkelys på "the proxy-problem" i studier som tar for seg kroniske sykdommer eller tilstander generelt (6, 9) og i studier som er diagnosespesifikke (10, 11).

Studiene har sett på korrelasjon mellom foreldrenes og barnas rapportering ved bruk av ulike, anerkjente selvrappoterings skjemaer for fysisk funksjon og livskvalitet som KIDSCREEN-10, DISABKIDS condition generic measure (DCGM-10) (6), Childhood Health Assessment Questionnaire (CHAQ) (10), Medical Outcome Study 36-item Short Form Health Survey (SF-36) og Pediatric Quality of Life Inventory, revmatologisk versjon (PedsQL) (11). Enkelte rapporterings skjemaer har flere versjoner tilpasset ulike aldre, som PedsQL (8-12 år, 13-18 år og for foreldre), mens andre, som CHAQ, har en ungdomsutgave og en forelderutgave. Andre igjen, som SF-36, er kun utviklet for de over 16 år. Felles for flere av de velkjente selvrappoteringsverktøyene er at de tar tid å fylle ut og er kompliserte å skåre, og dermed ikke benyttes rutinemessig ved de fleste barnerevmatologiske sentra (3, 12).

Noen studier viser at det er stort samsvar mellom foreldrenes og pasientenes rapportering, spesielt på fysiske/synlige områder, men på psykososiale områder forekommer at foreldrene både rapporterer mer og mindre problemer i forhold til det barnet rapporterer (10, 13). Sattøe et al. viser i sin studie til at nyere forskning diskuterer om problemet kanskje ikke er så uttalt som tidligere antatt, men i samme studie foreslås at størrelsen på problemet kan avhenge av diagnose og hvilken alder pasienten har (6). Det er mange studier som har sett på «the proxy problem» og det er funnet holdepunkter for at både alder, kjønn og helsestatus påvirker enighet mellom foreldre og pasienter. I følge en systematisk review over temaet foreldre/pasient-samsvar, er det få som har tatt med i hvilken grad dette påvirker samsvaret og i hvilken retning manglende samsvar går (6, 14).

Innen barnerevmatologien er det økende fokus på foreldre/pasient rapportert utkomme (PRO). Flere selvrappoteringsverktøy og metoder er tatt i bruk i ulike studier, som visuell analog skala (VAS) for måling av for eksempel barnets totale helsetilstand og grad av smerte (15, 16), samt spørreskjemaer som kartlegger fysisk funksjon og helse relatert livskvalitet (CHAQ, Child Health Questionnaire (CHQ), Juvenile Arthritis Quality of Life Questionnaire (JAQQ)) (13, 17, 18). Det er også i flere studier innen barnerevmatologi satt søkelys på sider ved proxy-rapportering (10, 19).

Pediatric Rheumatology International Trials Organization (PRINTO), Italia, startet i 2005 utviklingen av et nytt selvrappoterings skjema for barneleddgikt, The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report, JAMAR (12). Det nye med dette skjemaet er at de har samlet diagnose-relevante og de mest brukte rapporteringsverktøyene i ett og samme skjema samt at de har inkludert PRO-komponenter som ikke er å finne i andre velkjente skjemaer.

Ved bruk av JAMAR skal man derfor kunne få et mer dekkende bilde av totalsituasjonen for barnet ved hjelp av kun ett skjema. JAMAR finnes i to versjoner; en for foreldre til barn fra 2 til 18 år og en språktilpasset versjon for barn fra 7 til 18 år.

Fra 2011 til 2013 var jeg involvert i oversettelsen og den kulturelle tilpasningen av den engelske versjonen av JAMAR til norsk samt valideringen av den norske versjonen. Gjennom dette arbeidet ble jeg nysgjerrig på hvordan JAMAR plasserer seg når det gjelder «the proxy problem» sagt med Payton «Research should begin with an intellectual itch that needs scratching» (Payton 1994 i Carter 2011)(20).

1.2 Hensikten med studien

PRINTOs ønske med JAMAR er at det skal være et selvrapporteringsverktøy som skal brukes i flest mulig land og på flest mulig avdelinger i den vanlige kliniske hverdagen, for på den måten å bedre kvaliteten og effektiviteten på ivaretagelsen av pasientgruppen. Samtidig har JAMAR vist seg å kunne brukes i forskning og vil dermed kunne være et viktig bidrag til sammenligning av resultater i internasjonal forskning.

I den italienske valideringen av JAMAR har de funnet stor grad av korrelasjon mellom foreldre og pasienters rapportering (12). Da JAMAR er et verktøy det er ønskelig at skal brukes internasjonalt, har PRINTO anbefalt at det gjøres nasjonale studier på blant annet grad av samsvar. En forskergruppe fra Sveits viser i en slik studie at det er elementer i JAMAR som skiller seg ut med gjennomgående redusert korrelasjon, og konkluderer med at det ved bruk av JAMAR vil være av stor betydning for klinikerne å se på både foreldrenes og pasientenes rapportering for å danne seg et riktigst mulig bilde av situasjonen og dermed bidra til en best mulig oppfølging av pasientene (4).

Skal JAMAR anbefales til bruk i Norge, vil det være viktig å finne ut av hvordan den norske versjonen av JAMAR plasserer seg i dette bildet. Skiller den seg ut i forhold til resultatene av studiene i Italia og Sveits? Er det i en norsk populasjon områder der det er spesielt viktig å ta med hva både pasienten og forelderen rapporterer ved vurdering av tiltak og oppfølging?

For å belyse dette har jeg satt opp tre problemstillinger.

1.3 Problemstilling

- 1) I hvilken grad er det samsvar mellom hva barn med barneleddgikt i alderen 12 til 18 år rapporterer og det deres foreldre rapporterer på de ulike kvantitative delkomponentene i den norske versjonen av skjemaet The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report (JAMAR)?
- 2) Hvordan er retningen på skåringene – skårer pasientene høyere eller lavere enn foreldrene?
- 3) Påvirker variablene Kjønn, Alder ved undersøkelse, Sykdomsvarighet og Legens vurdering av sykdomsaktivitet grad av samsvar?

1.4 Oppbygging og avgrensing av besvarelsen

Min studie er en delstudie av OUS sin del av valideringsstudien av den norske versjonen av JAMAR.

Det er en studie av ett skjema brukt av to forskjellige respondenter for å rapportere på funksjoner relatert til den ene respondenten. Det tas derfor utgangspunkt i at det er samsvar mellom de to respondentene, så studien dreier seg i hovedsak om å kvantifisere og nyansere graden av samsvar. Denne type studie er i litteraturen også beskrevet som en reliabilitetsstudie av typen inter-rater reliabilitet, se 1.5 for definisjon (7).

Det er foreløpig kun publisert to studier som har sett på grad av samsvar ved bruk av JAMAR, en italiensk (12) og en sveitsisk (4). I den italienske studien har de sett på de samme syv delkomponentene av skjemaet som er valgt for denne studien, mens i den italienske har de med fem av de samme delkomponentene. Når det gjelder hvilke parametere som kan påvirke grad av samsvar, har den italienske studien kun publisert resultater på om pasientens alder påvirker. I den sveitsiske studien er det sett på om alder ved debut, alder ved undersøkelse, sykdomsvarighet, antall aktive ledd og legens vurdering av sykdomsaktivitet påvirker. For å kunne sammenligne resultater, er valg av mulige påvirkningsvariabler i aktuelle studie inspirert av disse to tidligere studiene, samt på bakgrunn av erfaringer fra klinikken.

Besvarelsen vil bestå av en kort innføring om barneleddgikt, kort om PRO og «the proxy problem» innen barnerevmatologien, en beskrivelse av JAMAR og de måleverktøyene som det inneholder samt kort om CHAQ, en metodebeskrivelse, resultatene, en diskusjon av både metode og resultater og til slutt en konklusjon. Selv om JAMAR er laget som et alternativ til det mest brukte selvrapporertingsverktøyet innen barnerevmatologi, CHAQ, vil besvarelsen ikke inneholde noen fullstendig sammenligning mellom disse to.

1.5 Begrepsavklaring

Validitet og reliabilitet er sentrale begrep når kvalitet innen forskning skal vurderes. I denne besvarelsen vil begrepene i hovedsak bli brukt knyttet til omtalen av måleinstrumentene eller kartleggingsverktøyene som inngår i JAMAR eller andre nevnte kartleggingsverktøy.

Validitet forstås vanligvis som et forskningsresultats troverdighet og brukbarhet; måler verktøyet det det er ment å måle? I faglitteraturen beskrives flere ulike komponenter knyttet til validitetsbegrepet, men felles for alle er at de er potensielle trusler mot en studies eller et måleverktøys kvalitet. I denne besvarelsen har jeg valgt å benytte tredelingen til Carter et al. (20), da det er denne som hovedsakelig går igjen i referansene jeg har brukt i besvarelsen: *Begrepsvaliditet (construct validity)* omhandler blant annet verktøyets eller metodens diskriminerende evne, som for eksempel evnen til å skille mellom frisk (kontrollgruppe) og syk (gruppe som kartlegges).

Innholdsvaliditet (content validity) omhandler i hvilken grad måles/undersøkes det som skal undersøkes. Ved spørreskjemaer kan dette gjelde om spørsmål, emner eller temaer er dekkende for problemstillingen.

Kriterievaliditet (criterion validity) viser til sammenligning av verktøyet opp mot en «gullstandard». Dette er aktuelt når det for eksempel er ønskelig å utvikle et nytt verktøy til erstatning for et som er mye brukt, eller som et alternativ til et som er definert som et «gullstandard» verktøy, og som måler samme fenomen.

Reliabilitet handler om i hvilken grad metoden er repeterbar, det vil si grad av presisjon ved gjentatte målinger. Ved spørreskjemaer er det vanlig å bruke a) intra-rater reliabilitet ved en test-re-test (samme person kartlegger et individ på ulike tidspunkt) eller b) inter-rater reliabilitet (ulike personer kartlegger samme person på samme tidspunkt) (21).

Målefeil inndeles i tilfeldige og systematiske. De tilfeldige vil statistiske metoder kunne kompensere for, mens de systematiske er mer kritiske. Systematiske feil (bias) går utover validiteten og «kilder til systematiske feil må derfor indentifiseres og elimineres» (21).

Følsomhet for endringer (responsiveness) omhandler i hvilken grad måleverktøyet fanger opp endringer i status. Lav begrepsvaliditet, for eksempel få tall på en skala eller få kategorier å velge mellom, kan medføre at verktøyet eller metoden er lite følsom for endringer og kan gi en gulv- eller takeffekt.

Gulv – eller takeffekt kan oppstå når en stor andel av utvalget har skår på den laveste eller øverste delen av skalaen. Slike effekter reduserer måleverktøyets følsomhet for endringer. I besvarelsen refereres til artikler der takeffekt er brukt for maksimalt gode skår, det vil si bra funksjon, ingen smerter, ingen sykdomsaktivitet, og annet, altså skår = 0 i aktuelle måleverktøy.

Outliers og ekstremverdier er begrep knyttet til deskriptiv statistikk ved bruk av boksplot i SPSS. Med *Outliers* menes de skårene som i et boksplot ligger mer enn 1,5 bokslengder fra øvre eller nedre kant av boksen (boksen=50 % av skårene). *Ekstremverdier* betegner de skårene som ligger mer enn tre bokslengder fra øvre eller nedre kant av boksen (22).

Et uttrykk som går igjen i besvarelsen er «*i klinikken*». Med dette menes det daglige arbeidet på en sengepost, dagenhet eller poliklinikk, hovedsakelig i spesialisthelsetjenesten.

Foreldre/foreldrene i stedet for foresatte eller pårørende er brukt gjennom hele besvarelsen, da dette er brukt i JAMAR-skjemaet.

Compliance er her brukt i tråd med det som er vanlig innen klinisk medisin; som etterlevelse, det vil si i hvilken grad pasienter følger opp egen behandling og helsepersonells råd (23).

Selv om pasientene i utvalget er fra 12 til 18 år, og vel å regne som ungdommer, er det valgt å bruke barn(a) eller pasient(ene) i teksten når utvalget omtales.

I artikler som er brukt som referanser i besvarelsen brukes ofte «under»- eller «overrapportering» når de sammenligner pasientenes og foreldrenes skår. Man kunne definere at det er pasientenes skår det sammenlignes ut i fra, men jeg velger i stedet å bruke begrepene «høyere enn» eller «lavere enn», da det ikke er etablert noen gullstandard å måle opp mot.

For å lette lesingen har jeg valgt å sette studiens variabler, de syv kvantitative delkomponentene av JAMAR, i *kursiv* og de fire påvirkningsvariablene i *kursiv og understreket* i teksten,

2 Teoretisk bakgrunn

2.1 Om barneleddgikt (Juvenil idiopatisk artritt - JIA)

Barneleddgikt er en kronisk autoimmun inflammatorisk ikke-infeksiøs leddsykdom. Den oppstår før fylte 16 år (juvenil), har ukjent årsak (idiopatisk) og kjennetegnes ved leddbetennelse (artritt). Den skal ha en varighet av minst 6 uker og andre årsaker til leddbetennelse, som blant annet septisk artritt, artritt i forbindelse med osteomyelitt og post-infeksiøs artritt, skal være utelukket. Opp mot 20 % av barn med nyoppstått leddbetennelse viser seg å ha barneleddgikt (24).

Barneleddgikt betegner en heterogen sykdomsgruppe og kan affisere ledd, knokler, muskler, sener, bindevev og øyne (regnbuehinnebetennelse).

Smerte, stivhet, hevelse, vekstforstyrrelser og tretthet er sentrale symptomer (25). Dette kan føre til redusert leddbevegelighet, muskelsvakhet, nedsatt funksjon og redusert utholdenhet (26-28). Sykdommen har et svingende forløp med gode og dårlige perioder.

2.1.1 Klassifisering

Barneleddgikt har opp gjennom årene vært klassifisert og inndelt i ulike sett med undergrupper, og den har hatt flere ulike navn som (JRA) og juvenil kronisk artritt (JCA).

I den nåværende, internasjonalt rådende, inndelingen heter sykdommen juvenil idiopatisk artritt (JIA) og er delt i syv undergrupper etter antall og type angrepne ledd, andre involverte organer, pasientkarakteristikker og tilstedeværelse av revmatoid faktor (RF). Kriteriene er utarbeidet av The Pediatric Standing Committee of the International League of Associations for Rheumatology (ILAR) i 1995, nå International League of Associations for Rheumatology. De er revidert i flere omganger og den siste ble publisert i 2004 (29) og er inndelt slik:

- Systemisk JIA (svingende feber)
- Polyartikulær, revmatoid faktor negativ JIA (> fire ledd)
- Polyartikulær, revmatoid faktor positiv JIA (> fire ledd)
- Oligoartikulær JIA (\leq fire ledd)
 - Vedvarende oligoartikulær
 - Utvidet oligoartikulær (flere enn fire ledd etter seks måneder)
- Entesittrelatert artritt (økt risiko for inflammatorisk ryggsykdom)
- Psoriasisartritt
- Udifferensiert artritt (kvalifiserer ikke til noen av de ovenfor nevnte kategorier eller til fler enn en kategori)

2.1.2 Etiologi og epidemiologi

Barneleddgikt er den vanligste av de revmatiske sykdommene hos barn. Årsaken(e) til sykdommen er foreløpig ukjent, men det er tegn som tyder på at den utløses og påvirkes av genetiske og miljøbestemte faktorer (25, 30).

Den er vanligst blant jenter (60-70 %) (31), bortsett fra systemisk barneleddgikt, som er like vanlig hos begge kjønn, og entesittrelatert leddbetennelse, der forekomsten er tilnærmet lik eller med dominans av gutter (30, 32). Gjennomsnittlig debutalder er i nordiske studier funnet å være syv år (31, 33).

Opgitt forekomst av barneleddgikt varierer betydelig mellom ulike land og også innenfor samme land. Dette kan ha flere årsaker, blant annet bruk av ulike klassifikasjonskriterier, studiedesign og genetik. Studier viser at det i Norden er fra ca. 11-23 nye tilfeller pr. 100 000 innbyggere pr. år (31, 34), som i Norge, med en populasjon fra 0-16 år på ca. 1 million, gir ca. 110 - 230 nydiagnostiserte pr. år. I andre europeiske land ligger forekomsten jevnt over noe lavere. Det er ikke gjort studier på prevalens i Norge som helhet, men i land vi kan sammenligne oss med varierer tallene fra 75-148 pr. 100 000 (35, 36).

2.1.3 Behandling og prognose

Det finnes foreløpig ingen behandling som kan kurere barneleddgikt, men prognosen har bedret seg betydelig bare de siste 10 årene mye på grunn av utviklingen av nye medikamenter.

Ivaretagelsen av pasientgruppen er utpreget tverrfaglig og består hovedsakelig av medikamentell behandling, fysioterapi, ergoterapi og ulike psykososiale tiltak. I spesialisthelsetjenesten involverer dette et bredt sammensatt spisskompetent team. Teamet kan bestå av revmatolog/pediater, sykepleier, fysioterapeut, ergoterapeut, sosionom, barnepsykiater/psykolog, spesialpedagog, revmakirurg, ortopeditekniker, øyelege og kjevespesialist.

I Norge ligger det overordnede behandlingsansvaret for aldersgruppen 0-18 år hos enten barnerevmatologer på OUS, pediatere på de andre regionssykehusene eller revmatologer der de overføres til en voksenrevmatologisk avdeling før fylte 18 år. Behandlingsansvaret er regionalisert, men enhet for barne- og ungdomsrevmatologi på Rikshospitalet, OUS, mottar også pasienter til second opinion. Her ligger også Nasjonal behandlingstjeneste for barnerevmakirurgi samt Nasjonal kompetansetjeneste for barne- og ungdomsrevmatologi (NAKBUR).

Den medisinske behandlingen består i hovedsak av betennelsesdempende og/eller sykdomsmodifiserende medikamenter, leddinjeksjoner og biologiske medikamenter. Flere nye biologiske medisiner er godkjent til bruk for barn og har gjort at stadig fler oppnår remisjon og opprettholder god fysisk funksjon i forhold til for bare 10-15 år siden (28, 30). Målet med den medisinske behandlingen er å oppnå så lav sykdomsaktivitet og så lite leddødeleggelser som mulig, og aller helst; at sykdommen går i remisjon med minst mulige sequeler.

I tillegg til medisinsk behandling benyttes ofte fysioterapi samt ergoterapi for å opprettholde eller øke funksjonsnivået, med det målet at barna skal kunne være i så normal fysisk og psykososial aktivitet som mulig i familien, i barnehagen og på skolen sammen med jevnaldrende. Kunnskap om sykdommen og anbefalt fysisk aktivitet har endret seg betydelig de siste 10-15 årene. Tidligere var anbefalingene at barna skulle være forsiktige med fysisk aktivitet og den ikke-medikamentelle behandlingen var ofte immobilisering og hvile (37), mens det nå er motsatt; generelt anbefales all fysisk aktivitet (38, 39). Det har vist seg å ha flere negative konsekvenser både fysisk og psykososialt å være i ro enn å være aktiv.

Da sykdommen er utpreget heterogen, forløper den også forskjellig hos hver enkelt. Noen får affeksjon av kun ett ledd og oppnår remisjon etter kort tid, mens andre blir angrepet i mange ledd samt andre organsystemer som hud og øyne. Tilstanden kan veksle mellom aktivitet i sykdommen og remisjon, eller kontinuerlig sykdomsaktivitet i mange år, også inn i voksenalder, med tilhørende funksjonsreduksjon (40).

Generelt regner man med at ca. 50 % av barna har aktiv sykdom når de går over i voksen alder. Dette er bekreftet blant annet ved en nordisk studie fra 1997 til 2000 som viste at opp mot 50 %, til tross for tradisjonell behandling, har aktiv sykdom 8 år etter debut (41). En helt fersk, norsk oppfølgingsstudie, der 176 voksne pasienter med barneleddgikt er fulgt i opp til 30 år etter sykdomsdebut, viser at 41 % har aktiv sykdom eller tar medisiner etter 30 år, og at 28 % hadde høyt symptomnivå (40).

Prognosen varierer med undergruppene; det er best prognose for de med vedvarende oligoartikulær JIA og systemisk JIA, mens de med revmatoid faktor positiv polyartikulær JIA eller utvidet oligoartikulær JIA er mest utsatt for at sykdommen ikke går i remisjon. En norsk studie fra 2003 på 268 pasienter med barneleddgikt viste remisjon for 76 % av pasientene med systemisk JIA, 46 % med polyartikulær RF-negativ, 15 % med polyartikulær RF-positiv og 35 % med oligoartikulær JIA etter sykdomsvarighet på median 14.9 år (range 11.7–25.1) (28). Studier viser også at 25-30 % utvikler destruksjon av ledd og knokler (26, 27) og at 40 % utvikler fysisk funksjonsnedsettelse (26-28). Mental helse, utdanningsnivå og sosial funksjon er sammenlignbare med den generelle befolkningen for gruppen som helhet, mens arbeidsledigheten er høyere enn i normalbefolkningen til tross for godt utdanningsnivå (26, 28). En studie på norske barn fra 2003 viste at pasientgruppen har noe redusert psykososial funksjon i forhold til friske kontroller (28).

Det er foreløpig få studier på langtidsutkomme etter at biologiske medikamenter ble vanlig å bruke. I dag ser vi i klinikken at store deler av pasientgruppen har betydelig redusert sykdomsaktivitet og bedret funksjons- og aktivitetsnivå, men enkelte symptomer vedvarer til tross for biologisk behandling, spesielt smerter og fatigue (42).

2.2 Om foreldre/pasient-rapportert utkomme (PRO) og "the-proxy-problem" i barnerevmatologien

Outcome eller utkomme betyr resultat eller utgang. Innen helseforskning kan det defineres som "konsekvensene av en sykdom over tid". Konsekvensene av å ha barneleddgikt i oppvekstårene gjenspeiler sykdommens heterogenitet og virker inn på de fleste områdene av pasientens liv; både fysisk, psykososialt, intellektuelt og økonomisk (jfr. 2.1.3). Målene (måleverktøyene) for utkomme innen barnerevmatologiske sykdommer er derfor mange. Tradisjonelt var måleverktøyene rettet inn mot legens kartlegging av grad av sykdomsaktivitet, for eksempel antall betente ledd eller grad av morgenstivhet, som tegn på hvor virksom behandlingen var og som grunnlag for avgjørelser om behandlingstiltak. Med årene har synet på hva helse er utviklet seg, og med det synet på hvem sine perspektiv som skal med i disse vurderingene.

PRO gir foreldrenes og pasientenes perspektiv på barnets eller egen helse og stemmer ikke nødvendigvis overens med helsepersonells oppfatning. Det gir noe i tillegg til de måleverktøyene for utkomme som klinikerne bruker. Generelt forstås helserelatert livskvalitet (HRQoL) som pasientens egen opplevelse av konsekvensene av sykdommen og behandlingen for eget hverdagsliv; både fysisk, psykisk, sosialt og for generelt velbefinnende (43). For barn og unge med barneleddgikt kan det for eksempel være viktigere hvordan de mestrer de daglige utfordringene enn hvor mange ledd det er betennelsesaktivitet i, eller hvor lenge de er morgenstive.

Tidligere har det også innen barnerevmatologien vært mest vanlig å basere PRO og HRQoL på foreldrenes rapportering (proxy-rapportering), men i de siste tiårene har bevisstheten om viktigheten av barnets egen opplevelse av livet med sykdommen økt (12, 44). Forskningen konkluderer ulikt på om foreldrene er egnet til å rapportere på vegne av barna om hvordan de har det. Flere studier innen barnerevmatologi refererer til studier som konkluderer med at foreldre er adekvate informanter om deres barns tilstand og livskvalitet i tilknytning til sykdommen (45-47). I andre, og nyere, studier rapporteres det betydelige forskjeller mellom foreldrenes og barnas opplevelse av sykdommen, og at ulike komponenter kan påvirke graden av samsvar. En engelsk studie på 303 foreldre/ pasient-par fra 2006 viste at det var bedre samsvar mellom foreldre og pasient der sykdomsgraden var mild eller alvorlig samt for

synlige tegn på sykdommen, som fysisk funksjon (10). Dette støttes av en annen engelsk studie fra 2011 (n=204) som fant at det var større grad av samsvar på fysisk funksjon, altså noe synlig, enn for smerte og velbefinnende, noe mer subjektivt. De fant også at hverken alder, kjønn eller sykdomsvarighet påvirket samsvaret (48), mens de i en svensk studie med 53 foreldre/pasient-par fra 2012 fant at kjønn påvirket grad av samsvar (5). Der studier har vist lav eller moderat enighet mellom foreldre og barn, har foreldrene rapportert både dårligere og bedre livskvalitet enn barna, avhengig av hva som kartlegges (47, 49). En argentinsk/italiensk studie av 94 barn med barneleddgikt undersøkte grad av samsvar mellom pasient, forelder og legers kartlegging av både smerte, fysisk funksjon og velbefinnende og fant at pasientene (barna) gjennomsnittlig skåret lavere, altså rapporterte mindre plager enn foreldrene, spesielt for smerte og velbefinnende. Det var kun moderat grad av samsvar på disse områdene (19). De refererte studiene har benyttet seg av ulike måleverktøy (CHAQ, 10-cm horisontal VAS, PedsQL og JAQQ).

Viktigheten av PRO understrekes i stadig større grad i medisinsk litteratur og uttrykkes slik av forfatterne av en review over tilgjengelige PRO-verktøy for barn med barneleddgikt:

At a system level, capturing a broad range of information about symptoms, side effects, and treatment outcomes is thought to contribute to more patientcentered care, improved patient experience, and potentially better treatments, particularly when this information is used to assess comparative effectiveness (50).

Nevnte studier konkluderer med at det er av stor betydning for en god behandling av barnets sykdom å få både barnets og foreldrenes opplevelse av hvordan barnet har det.

2.3 The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report – JAMAR

JAMAR er et diagnosespesifikt rapporteringsverktøy for barneleddgikt utviklet med tanke på bruk i den vanlige, travle kliniske hverdagen. Det er ment brukt som både et selvrapporteringsverktøy i aldersgruppen 7 til 18 år og et proxy-rapporteringsverktøy for foreldre til barn i alderen 2 til 18 år. Hovedformålet var å utvikle et selvrapporteringskjema som samler de viktigste kartleggingsverktøyene og -metodene utarbeidet for barn og unge med barneleddgikt samt tilføye andre PRO-verktøy, som ikke vanligvis er med, for å fange opp pasient- og foreldres opplevelse av flest mulige sider ved sykdommen. Det anbefales brukt ved hver kontroll, før man går inn til legen, slik at legen ved hjelp av kun ett skjema, på en rask måte kan få oversikt over hvordan det går med pasienten. På den måten er det tenkt å være et nyttig hjelpemiddel i konsultasjonen slik at fokus kan konsentreres om områder hvor det kan være aktuelt med tiltak og på den måten bidra til å effektivisere klinikken. I tillegg vil det kunne bidra til at pasient og foreldre på forhånd samler seg om hva som er mest aktuelt å ta opp med legen (12).

Skjemaet er utviklet i Italia av en gruppe bestående av syv barnerevmatologer tilknyttet PRINTO og er basert på deres lange erfaring (3 til mer enn 20 år) med klinisk arbeid og forskning på barn og unge med JIA samt på litteraturgjennomgang på PRO hos voksne og barn med kronisk revmatisk sykdom (12). Utkastet til skjemaet ble vurdert for innholdsvaliditet (construct validity) av tverrfaglig personell; 8 barnerevmatologer, fire pediater, fire fysioterapeuter, tre spesialsykepleiere samt en psykolog. De hadde ulike kommentarer som medførte endringer i utkastet. Innholdsvaliditeten ble også vurdert av 49 barn med barneleddgikt og deres foreldre, og endringer ble gjort både vedrørende ordvalg, forklaringer/definisjoner av begreper og funksjoner samt at illustrasjoner knyttet til VAS-skalaene (surt og blidt fjes) ble føyd til.

Skjemaet er laget i to utgaver, en for barn/unge fra 7 til 18 år og en for foreldre til barn/unge 2-18 år. Det består av 15 delkomponenter innen hovedområdene fysisk funksjon/evne, smerte, sykdomsaktivitet nå samt forløp, morgenstivhet, affiserte ledd samt ekstra-artikulære plager som feber og utslett, velbefinnende (overall well-being), medikamenter (compliance og bivirkninger), tilfredshet med nåværende tilstand samt fysisk og psykososial livskvalitet. Skjemaet gir ikke en totalskår, men en rekke delskår og inneholder flere ulike velkjente

måleverktøy som Visuell Analog Skala (VAS), Juvenile Arthritis Functionality Scale (JAFS) og Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale (PRQL). Det er det første spørreskjema som har med selv- eller proxy-rapportering av leddsymptomer.

618 barn/foreldre-par deltok i den italienske valideringen av det ferdigutviklede JAMAR (11), proxy-rapportert fra 2-18 år og selvrapportert fra 7 år. Den viste at skjemaet er lett å forstå, raskt å fylle ut, lett å administrere og raskt å skåre. Studien viste god begrepsvaliditet ved blant annet at komponentene i JAMAR er godt egnet til å skille ulike grader av sykdomsaktivitet og alvorlighetsgrad. Ved vurdering av grad av samsvar mellom pasienter og foreldre fant de «striking similarity for most items» (12). Når det gjelder parametere som kan påvirke grad av samsvar, har de kun publisert vedrørende alder, som viste svakest korrelasjon for fysisk funksjon i den laveste aldersgruppen (<10 år $r=0.67$) og for psykososial helse i den eldste aldersgruppen >15 år ($r=0.49$).

Valideringsstudien konkluderte med at JAMAR er et valid og reliabelt selv- og proxy rapporteringsverktøy velegnet til bruk i en travel klinisk hverdag. Selv om hovedformålet med skjemaet var at det skulle være egnet til bruk i klinikken, har valideringen vist at de komponentene som gir talldata og kategoriske data også er egnet for klinisk forskning. Den italienske forskergruppen peker på begrensninger ved skjemaet, blant annet er enkelte PRO-komponenter ikke tatt med, som søvnkvalitet, fatigue, mestring og familieliv. De ønsker en videreutvikling av JAMAR på bakgrunn av videre forskning og erfaringer fra bruk i en klinisk hverdag i andre land.

Resultatene fra den norske valideringsstudien er ikke publisert ennå, men artikkelen er skrevet, og viser at JAMAR er et valid verktøy til bruk for kartlegging av utkomme og HRQoL hos norske barn og unge med barneleddgikt samt at det er velegnet til rutinemessig bruk både i klinikken og i forskning.

2.4 Måleverktøyene i JAMAR

I aktuelle studie er det sett på syv kvantitative variabler, det vil si syv delkomponenter av JAMAR, kartlagt ved tre ulike måleverktøy; Visuell analog skala (VAS) for *Smerte*, selvrapportert *Sykdomsaktivitet* og *Velbefinnende*, Juvenile Arthritis Functionality Scale (JAFS) for *Fysisk funksjon sumskår* og Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale (PRQL) for *Livskvalitet*, en totalskår samt delskår for *Fysisk* (PRQLPhH) og *Psykososial helse* (PRQLPsH)). Under vil jeg beskrive de ulike måleverktøyene.

2.4.1 Visuell Analog Skala - VAS

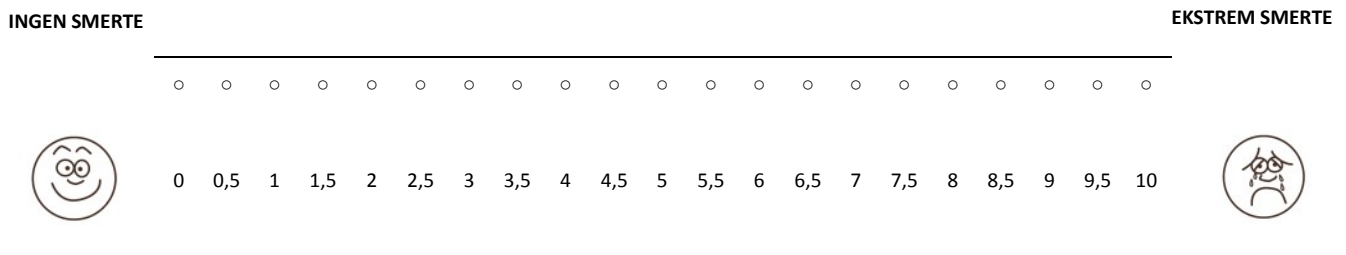
I JAMAR er *Smerte*, selvrapportert *Sykdomsaktivitet* og *Velbefinnende* rapportert ved bruk av en Visuell Analog Skala (VAS).

En VAS skala er tradisjonelt en rett, 10-cm lang linje uten tall, hvor endene beskriver henholdsvis den positive og negative ekstremverdien av det man ønsker å måle. Det valgte punktet på linjen tallfestes ved bruk av en linjal og som antall millimeter fra linjens venstre startpunkt. Den brukes også i andre varianter, som for eksempel en 5- eller 3-punktsskala, eller en 10- eller 20-punktsskala, der det vil være fra 11 til 21 svaralternativer. Disse linjene er ikke nødvendigvis akkurat 10 cm lange.

Den er diagnoseuavhengig og varianter finnes når det er barn som skal rapportere, for eksempel med smile-/surt/trist ansikt. VAS kan brukes av alle grupper helsepersonell og til måling av mange ulike fenomener, som for eksempel smerte, tretthet, stivhet, sykdomsaktivitet, utførelse av ulike aktiviteter og tilfredshet med ulike fenomen. Ved selvrappotering krysser pasienten eller foreldre (proxy-rapportering) av på skalaen hvor de synes de selv eller barnet er i forhold til det som måles. Flere studier, for eksempel Ruperto et al sin studie fra 1999, der 10-cm horisontal VAS ble brukt som proxy rapporteringsverktøy for barn med barneleddgikt (n=132), har vist at den er pålitelig og sensitiv for endringer (15, 16). Ulike studier har også sett på hvilken type VAS skala som gir mest presise svar, og en tidlig studie på måling av smerte hos 20 unge voksne kvinner ved bruk av ulike skalaer (5 cm, 10 cm, 15 cm og 20 cm, med kun start og endepunkter ved en 1 cm vertikal linje), viste at jo lenger skalaen var jo mer presis ble målingene (51). Det har vært diskutert hvor egnet en visuell analog skala er å bruke for barn, og hvor langt ned i alder de er kognitivt i stand til å forstå den. En amerikansk studie på 106 barn i alderen 5 – 18 år viste at 10-cm VAS kan være

vanskelig å forstå; de som forsto VAS var signifikant eldre (mean=9.8 år, SD=2.8) enn de som ikke forsto den (mean=8.2, SD=2,5 år), og det var kun ca. en tredjedel av de inkluderte som både forsto meningen med VAS og skåret riktig (52).

I JAMAR er VAS-skalaen en 21-punkts skala, det vil si det er 21 svaralternativer ved 21 tall (hele og halve) bortover på en horisontal linje (0; 0,5; 1; 1,5; ... 10) og den kalles 21-punkts sirkel VAS (se Figur 1). Denne typen VAS kan også kalles en Numeric Rating Scale (NRS). NRS kan ha ulike størrelser eller antall punkter, men den mest vanlige er en 11 punkts skala med 11 hele tall der respondenten skal velge det som best svarer for grad av f.eks. smerte. I JAMAR er skalaens ytterpunkter også beskrevet med ord og et ansikt som skal illustrere grad av målte variabel. Ved måling av *Smerte* er ytterpunktene ”Ingen smerte” = 0 og ”Ekstrem smerte” = 10, ved *Sykdomsaktivitet* er det ”Ingen aktivitet” og ”Svært høy aktivitet», og for *Velbefinnende* ”Veldig bra” og ”Veldig dårlig”. Ansiktene er de samme på alle de tre brukte skalaene/variablene (Figur 1).



Figur 1. 21-punkts VAS brukt for *Smerte* i JAMAR.

I en italiensk studie fra 2010 sammenlignet man 10-cm horisontal linje VAS og 21-punkts sirkel VAS. Studien så på legens vurdering av sykdomsaktivitet samt foreldrenes vurdering av barnets sykdomsaktivitet og smerte med begge utgaver av måleverktøyet. Resultatene viste at 21-punkts VAS formatet hadde best begrepsvaliditet av de to samt indikerte at den øker presisjonsnivået på respondentens skår i forhold til en 10-cm VAS. Begge skalaer viste takeffekt (skår = 0) for både legens og foreldrenes skår; henholdsvis 31.6% og 35.3% på 10-cm VAS og 43.7% og 32.9% på 21-punkts VAS. Generelt viste 21-punkts VAS bedre egnethet for å fange opp forbedring enn forverring. Studien konkluderer med at den er et egnet alternativ til 10-cm VAS (53).

Frem til diskusjonen vil jeg bruke begrepet VAS-skala om måleverktøyet.

2.4.2 Juvenile Arthritis Functionality Scale - JAFS

JAFS er et diagnosespesifikt selvrapporteringsverktøy som kartlegger fysisk funksjon hos barn og unge med barneleddgikt. Det er utviklet av Pediatric Rheumatology International Trials Organization (PRINTO), Italia, i 2007 (54). Formålet med verktøyet er at det skal være egnet til bruk i den vanlige kliniske hverdagen i motsetning til det mer omfattende CHAQ, som lenge har vært det mest brukte selvrapporteringsverktøyet på fysisk funksjon hos barn og unge med barneleddgikt.

Kravene ved utviklingen av JAFS var at det skulle være enkelt og raskt å fylle ut, aktivitetene skulle være relevante for barn og unge i forhold til deres daglige aktiviteter/gjøremål og de skulle kunne gjøres av barn og unge i alle aldre (2-18 år). I tillegg skulle det involvere og avdekke de vanligst affiserte leddene ved barneleddgikt, være enkelt å skåre og kunne skille hvilke ledd/grupper av ledd som er til mest hinder for funksjon, samt gi legen rask oversikt slik at det kunne gi grunnlag for vurdering av videre tiltak/behandling der og da i konsultasjonen. CHAQ er mer detaljert, tidkrevende, har mer fokus på ADL, har et komplisert skåringssystem og blir mest brukt innen forskning (se kap.2.5). Det er utviklet som både et selvrapporteringsverktøy for barn 7 -18 år og et proxy-rapporteringsverktøy.

JAFS består av 15 spørsmål inndelt i 3 grupper etter funksjonsområder; Underekstremiteter (for eksempel "Løpe minst 10 m på flatt underlag", "Hoppe fremover"), hånd/håndledd (for eksempel "Åpne og knytte nevene", "Klemme en ting med hendene") og overkropp (for eksempel "Legge hendene bak nakken", "Bøye hodet bakover og se i taket"). Skåringen gir 5 alternativer; 0 = Uten vansker, 1 = Litt vansker, 2 = Mye vansker, 3 = Klarer ikke, og i foreldreutgaven en rubrikk for «Ikke aktuelt i forhold til barnets alder». Det gir en totalskår fra 0 – 45, delskår fra 0 – 15 innen de tre funksjonsområdene, der 0 er uten vansker og 15/45 er maks vansker. JAFS kartlegger hovedsakelig bevegelighet og ferdigheter og i liten grad utholdenhet og styrke.

I følge Filocamo et al. viser JAFS god reliabilitet og validitet, samt middels god følsomhet for endringer over tid, og forfatterne konkluderer med at det er et valid verktøy for kartlegging av fysisk funksjon hos barn og unge med barneleddgikt. Sammenligningen med CHAQ indikerer at JAFS er bedre når det gjelder reliabilitet og validitet og minst like bra på følsomhet for endringer over tid (54).

2.4.3 Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale – PRQL

PRQL er et diagnosespesifikt rapporteringsverktøy som kartlegger helserelatert livskvalitet hos barn med barneleddgikt, inndelt i fysisk og psykososial helse. PRQL er utviklet av PRINTO og bygger på WHO's definisjon av helse (55). Det er ment å skulle være både et selvrapporteringsverktøy for barn 7 -18 år og et proxy-rapporteringsverktøy. Også når det gjelder dette verktøyet har formålet vært å utvikle en måte å kartlegge helserelatert livskvalitet sett fra pasientens perspektiv på en lettfattelig, rask og informativ måte slik at det kan brukes regelmessig i en vanlig klinisk hverdag. PRINTO hevder ikke at det gir en grundig kartlegging av alle sidene ved helserelatert livskvalitet, men mener det vil gi et innblikk som vil være et nyttig bidrag til en god ivaretagelse av pasientene.

Det inneholder 10 spørsmål, 5 spørsmål om fysisk helse, PRQL PhH (for eksempel "Har hatt vansker med å klare deg selv når det gjelder å spise, kle på deg eller vaske deg", "Har hatt problemer med å gjøre aktiviteter på skolen eller å leke med venner") og 5 spørsmål om psykososial helse, PRQL PsH (for eksempel "Har vært trist eller lei deg", "Har vært nervøs eller engstelig").

Skåringen gir 4 alternativer; 0 = Aldri, 1 = Noen ganger, 2 = Ofte, 3 = Hver dag, og i foreldreutgaven er det føyd til en rubrikk for «Ikke aktuelt» som gjelder hvis spørsmålet ikke er relevant i forhold til barnets alder. Totalskåren er 0-30, delskår 0-15, der 0 er ingen problemer og 15/30 betyr maks problemer.

Den italienske originalversjonen ble validert på en italiensk kohort barneleddgikts-pasienter (n=472) og deres foreldre samt på en kohort friske i samme alder (n=796). De fant at PRQL er kort og enkelt å fylle ut, noe som gjør at det er velegnet til bruk i klinikken. Resultatene viste at det har god innholds- og begrepsvaliditet, tilfredsstillende reliabilitet, meget gode diskriminerende egenskaper (syk/frisk) og middels god følsomhet for endringer over tid. Studien konkluderte med at PRQL var et valid instrument for å kartlegge fysisk og psykososial helse i denne kohorten, men at det syntes å kartlegge fysisk helse bedre enn psykososial helse (55). En valideringsstudie av den engelske versjonen på en gruppe pasienter med barneleddgikt og disses foreldre (n=161) i USA viste også at verktøyet er egnet for å kartlegge PRO, men peker på at det ikke dekker et like bredt spekter som andre mye brukte verktøy (PedsQL og JAQQ). De konkluderte med at PRQL er spesielt egnet med tanke på bruk i klinikken, da det er raskt både å fylle ut og å skåre (3).

2.5 Childhood Health Assessment Questionnaire - CHAQ

JAMAR er utviklet som et alternativ til CHAQ, det vil si et verktøy som er velegnet til bruk i en vanlig klinisk hverdag. Derfor vil jeg her kort beskrive CHAQ.

CHAQ er et diagnosespesifikt selvrapporteringsverktøy som hovedsakelig kartlegger fysisk funksjon hos barn og unge med revmatologiske sykdommer opp til og med 18 år, og er i dag det mest benyttede selvrapporteringsverktøyet for denne type kartlegging innen barnerevmatologisk forskning nasjonalt og internasjonalt. Det har imidlertid vist seg å være både tidkrevende å fylle ut og komplisert å skåre og dermed lite egnet til bruk i den regelmessige pasientoppfølgingen i klinikken (3).

CHAQ springer ut fra Stanford Health Assessment Questionnaire (HAQ), og ble tilpasset til bruk for barn i alderen 1-19 år i 1994 av Singh et. al (56). På dette tidspunktet fantes få verktøy utviklet spesielt for å måle helsestatus hos barn, og de to som fantes for barn med barneleddgikt var ikke tilpasset barn under 7 år. Målet med HAQ er kvantitativt å kartlegge funksjonsevne sett fra pasientens perspektiv, det vil si voksne med revmatoid artritt. Tilpasningen til barn ble gjort ved tilføring av flere nye spørsmål, slik at hvert kartlagt område inneholder minst ett spørsmål som er relevant for barn i alle aldre. Instruksjonen for utfylling av skjemaet understreker at funksjonene kun skal vurderes på bakgrunn av problemer knyttet til diagnosen, og ikke for eksempel på grunn av alder.

CHAQ kartlegger ADL og fysisk funksjon innen 8 områder (stille og kle på seg, reise seg, spise, gange, hygiene, å rekke ut etter, håndgrep, aktiviteter). Det inneholder 30 spørsmål med 4 skåringsalternativer hvor høy skår indikerer dårlig funksjon; 0 = Ingen vansker, 1 = Litt vansker, 2 = Mye vansker, 3 = Kan ikke gjøre dette, samt en rubrikk i foreldreutgaven for «Ikke aktuelt» i forhold til barnets alder. Aktiviteten med høyest skår innen hvert område regnes med i total-funksjonsskåren. Hvis barnet trenger hjelp av en person eller et hjelpemiddel, øker skåren på oppgaven med 1 poeng. Skjemaet inneholder også to 10-cm horisontale VAS-skalaer, en for smerte og en for generelt velbefinnende.

CHAQ er et anerkjent verktøy som er oversatt til mange språk og har vist høy grad av reliabilitet og validitet, gode diskriminerende egenskaper, men middels følsomhet (responsiveness) for endringer over tid (15, 18, 56). Det har også vist en mulig tak-effekt da

de fleste barn med barneleddgikt skårer lavt, det betyr at de har lite funksjonsnedsettelse i henhold til CHAQ.

CHAQ ble oversatt til norsk og validert på norske pasienter (n=116) og deres foreldre i 1998, og funnet å være et valid og reliabelt instrument for å måle funksjonsnedsettelse samt viste god følsomhet for klinisk viktige endringer i denne kohorten (17). Den norske oversettelsen finnes i 2 versjoner, en for foreldre til barn 0-16 år og en for ungdom fra 16 år.

I noen studier er det benyttet reviderte utgaver av CHAQ, der det er forsøkt å ta hensyn til redusert følsomhet for endringer samt mulig tak-effekt. De reviderte utgavene er ikke oversatt til norsk.

3 Metode

3.1 Design

Den delen av den norske valideringsstudien av JAMAR som ble utført på Oslo universitetssykehus (OUS), og som aktuelle studie utgår fra, er en tverrsnittsundersøkelse av et utvalg som bestod av 100 forelder/pasient-par der pasientene var barn med barneleddgikt mellom 2 og 18 år samt 100 friske forelder/barn-par der barna var mellom 7 og 18 år.

3.2 Utvalget

3.2.1 OUS' valideringsstudie av JAMAR

I OUS' del av den norske valideringsstudien på JAMAR ble det fra februar 2012 til februar 2013 inkludert 100 pasienter i alderen 2-18 år, og deres foreldre, samt 100 friske barn i alderen 7-18 år og deres foreldre. I Norge deltok også Universitetssykehuset i Nord-Norge (UNN) og St. Olavs Hospital i Trondheim med 100 pasient/foreldre-par fra hvert sted.

Pasientene og deres foreldre ble kontaktet av prosjektmedarbeidere i forbindelse med poliklinisk kontroll, dagopphold eller innleggelse på Enhet for barne- og ungdomsrevmatologi, Avdeling for revmatologi, hud- og infeksjonssykdommer. Inklusjonen foregikk fortløpende og inklusjonskriterier for valideringsstudien var at barnet hadde en sikker barneleddgikts-diagnose i henhold til ILAR-kriteriene samt alder fra 2-18 år.

Pasientene kom i hovedsak fra Helse Sør-Øst, men enkelte inkluderte var henvist fra andre regioner til second opinion på OUS.

Pasienter og foreldre ble kontaktet den dagen de kom til OUS. De ble først muntlig informert om studien, deretter fikk de levert et informasjonsskriv med samtykkeskjema etter retningslinjer fra Regional Etisk Komité (REK) og personvernombudet ved OUS. Foreldrene fikk informasjonsskriv og samtykkeskjema der pasientene var mellom 2 og 15 år. Der pasienten var mellom 12 og 15 år fikk de et alderstilpasset informasjonsskriv, mens foreldrene fikk informasjonsskrivet med samtykkeskriv. Pasienter mellom 16 og 18 år fikk eget informasjonsskriv med samtykkeskriv. De fikk tid til å lese igjennom dette og etterpå

mulighet for å stille spørsmål til studien, før de eventuelt sa ja til å delta. Se Vedlegg 2 – 4 for informasjons- og samtykkeskriv.

Inkluderingen ble avsluttet da vi nådde 100 pasient/foreldre-par, 6 av de spurte takket nei til å delta.

Den friske kontrollgruppen kunne bestå av venner eller søsken til inkludert pasient. Disse fikk informasjon gjennom foreldrene til pasienter som var inkludert og fikk informasjons- og samtykkeskriv enten levert av inkludert forelder eller tilsendt pr. post. Ferdig utfylte samtykker og skjema ble sendt tilbake til OUS pr. post.

3.2.2 Aktuelle studies utvalg

Dataene i aktuelle studie er trukket ut fra OUS' valideringsstudie. Studiens utvalg består av alle pasienter mellom 12 og 18 år og deres foreldre (en pr. pasient), og utgjør 52 pasient/forelder-par. Utvelgelsen fra de 100 inkluderte pasientene i OUS' valideringsstudie er kun basert på alder.

JAMAR er alderstilpasset for pasienter helt ned i syv års alder, mens denne studiens utvalg har et aldersspenn på 12 – 18 år. Da hovedproblemstillingen i aktuelle studie er å se på grad av samsvar mellom pasientene og foreldrene, er det viktig at de ikke har samarbeidet om skåringene. Instruksjonen fra valideringsstudiens medarbeidere til respondentene var at de ikke skulle samarbeide, men dette ble ikke sikret ved at de for eksempel satt i hvert sitt rom eller at en medarbeider var tilstede under skåringene. Sannsynligheten for at det var behov for samarbeid mellom foreldre og pasient antok jeg var større jo yngre pasienten var. For å sikre best mulig kvalitet på dataene ble nedre aldersgrense derfor satt til 12 år.

Da aktuelle studie kun skal se på et utvalg pasienter i alderen 12 til 18 år, vil populasjonen resultatene kan generaliseres til være barn i Norge med barneleddgikt etter ILAR-kriteriene i alderen 12 til 18 år, og deres foresatte.

3.3 Innhenting av data

Det er ikke innsamlet nye data i forbindelse med denne studien. Dataene er hentet fra allerede innsamlede data i OUS' del av JAMAR-valideringsstudien.

Den norske valideringsstudien baserer seg på skriftlig informert samtykke. Ved samtykke til deltagelse ble JAMAR delt ut; en pasientutgave til de \geq syv år og en foreldreutgave til alle foreldre. Pasient og forelder ble bedt om å fylle ut disse hver for seg under oppholdet på sykehuset. Skjemaene ble samlet inn etter noen timer, eventuelt neste dag.

I tillegg til at pasientene og foreldrene fylte ut JAMAR, registrerte legene på et eget skjema demografiske og sykdomsspesifikke opplysninger som kjønn, diagnose, alder ved inklusjon, alder ved sykdomsdebut, medikamenter med eventuelle bivirkninger, sykdomsaktivitet ved legens globale VAS, enkelte sykdomsparametere samt komorbiditet.

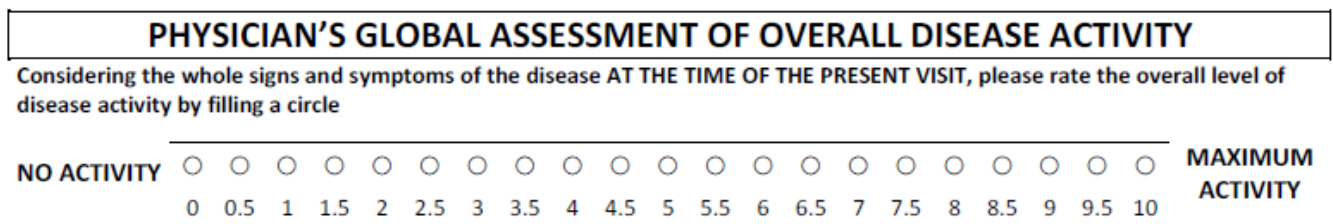
Dataene ble deretter lagt inn online av en prosjektsykepleier og sendt PRINTO, senteret som er ansvarlig for den internasjonale studien, som senere returnerte OUS' data til oss i en Excel-fil.

3.4 Variabler

For å beskrive utvalget har jeg valgt å ta med pasientens kjønn, foreldres kjønn, pasientens alder ved undersøkelse, det vil si ved utfylling av skjemaet, pasientens alder ved diagnose, sykdomsvarighet, undergruppe av barneleddgikt samt legens vurdering av sykdomsaktivitet.

En av variablene knyttet til Tabell 1 bør beskrives noe nærmere; Legens vurdering av sykdomsaktivitet (The physician's global rating of overall disease activity/physician's global), mens de andre gir seg selv.

I den norske valideringen av JAMAR inngår legeundersøkelse samt innhenting av enkelte sykdomsparametere, og for legens vurdering av sykdomsaktivitet er det valgt å bruke en 21-punkts VAS, Figur 2. Vurderingen baserer seg på en totalvurdering av tegn og symptomer på sykdomsaktivitet rapportert i legens undersøkelsesskjema utarbeidet for valideringsstudien, men det finnes ingen gullstandard for hva vurderingen skal inneholde.



Figur 2. 21-punkts VAS brukt for legens vurdering av sykdomsaktivitet.

Jeg har valgt ut syv av JAMARs 15 delkomponenter som avhengige variabler, Tabell 1. Utvalgte variabler er de samme som er brukt i studier gjort på samme skjema i Italia, mens i den sveitsiske studien har de valgt kun å ta med *Livskvalitet sumskår*, ikke delskårene for *Fysisk helse* og *Psykososial helse* (4, 12). I aktuelle studie er både sumskår og delskår med for *Livskvalitet*, da det er ønskelig å kunne sammenligne med både den italienske og den sveitsiske JAMAR-studien.

Da ordet «sykdomsaktivitet» går igjen som variabel i to ulike sammenhenger; selvrapportert *Sykdomsaktivitet* som en av de avhengige variablene, skåret av pasientene og foreldrene, og Legens vurdering av sykdomsaktivitet som en av påvirkningsvariablene, har jeg valgt å

spesifisere ved å føye til «selvrapportert» *Sykdomsaktivitet* i teksten der det gjelder pasientenes og foreldrenes skåringer.

De uavhengige variablene vil her være respondentene, i dette tilfellet to grupper, pasientene og foreldrene.

VARIABEL	BESKRIVELSE	DATATYPE	MÅLENIVÅ
Smerte	Ved VAS; 0 – 10, 21 siffer 0= ingen, 10= ekstrem	Visuell analog skala	Kontinuerlig
Sykdomsaktivitet	Ved VAS; 0 - 10, 21 siffer 0= ingen, 10= svært høy	Visuell analog skala	Kontinuerlig
Velbefinnende	Ved VAS; 0 – 10, 21 siffer 0= veldig bra, 10= veldig dårlig	Visuell analog skala	Kontinuerlig
Fysisk funksjon sumskår	Fysisk funksjon ved JAFS; 15 spørsmål svaralternativer 0,1,2,3 0= uten vansker, 3= klarer ikke Total skår 0-45, delskår 0-15	Kategorisk	Ordinal
Livskvalitet sumskår	Ved PRQL; 10 spørsmål, 5 fysisk helse/5 psykososial helse svaralternativer 0,1,2,3 0= aldri vansker, 3= hver dag Total skår 0-30	Kategorisk	Ordinal
Livskvalitet fysisk helse	Ved PRQL PhH; 5 spørsmål svaralternativer 0,1,2,3 0= aldri vansker, 3= hver dag Total skår 0-15	Kategorisk	Ordinal
Livskvalitet psykososial helse	Ved PRQL PsH; 5 spørsmål svaralternativer 0,1,2,3 0= aldri vansker, 3= hver dag Total skår 0-15	Kategorisk	Ordinal
<p>VAS: visual analog scale; JAFS: Juvenile Arthritis Functionality Scale; PRQL: Pediatric Rheumatology Quality of Life Scale; PhH: physical health; PsH: psychosocial health.</p>			

Tabell 1. Beskrivelse av studiens avhengige variabler, de syv valgte delkomponentene av JAMAR.

3.5 Analyser

Som problemstillingen sier er målet med studien, og dermed analysene, å kvantifisere samsvaret mellom pasient og forelders rapportering, og det er benyttet kvantitative analyser.

Aktuelle data for studien ble hentet ut av Excel-filen sendt OUS fra PRINTO, kodet og lagt inn i statistikkprogrammet SPSS (Statistical Package for Social Science) (22), versjon 21, av studenten.

Deskriptiv statistikk samt histogram og boksploet ble brukt for å beskrive utvalget samt utvalgets rapporteringer, og er ved skjevfordelte data presentert ved median og range, og ved normalfordelte data ved mean og standardavvik (SD). Jeg benevner skåringen som «lav» når den er innenfor nedre 33,3 % av aktuelle verktøys totalskala, «moderat» ved midtre 33,3 % av totalskalaen og «høy» ved øvre 33,3 % av brukte verktøys totalskala.

Alle outliers og ekstremverdier er sjekket, og to ekstremverdier er korrigert der det gikk helt klart fram at en forelder hadde misforstått retningen på VAS-skalaen for to variabler (selvrapportert *Sykdomsaktivitet* og *Velbefinnende*).

Dataene kan ikke ses på som data fra to uavhengige grupper, da skåringene gjelder en person (pasienten), men skåret av to, pasienten selv og dens forelder. Deltakerne i de to gruppene, og dermed dataene, er forbundet med hverandre, og vi har å gjøre med parede observasjoner av en gruppe (57).

Ved utregning av differansen mellom pasientens og forelderens svar, er forelderens skår trukket fra pasientens. Det vil si at hvis pasienten har skåret et lavere tall (mindre problemer og bedre funksjon) enn forelderens, vil differansen bli et minus-tall, altså forelderens har skåret mer problemer, dårligere funksjon og lavere livskvalitet enn pasienten. Histogram og boksploet ble brukt for vurdering av normalfordeling eller ikke. P-verdi er analysert ved paret t-test med signifikans på 0.05 nivå. Alle tester er to-sidige.

For å estimere forholdet mellom variabler brukes ofte korrelasjonskoeffisienter som Pearsons r (ved normalfordelte data) eller Spearman's ρ (ved skjeve data). Disse er interklasse-korrelasjonskoeffisienter. I aktuelle studie ønsker jeg å se på forholdet mellom to grupper skår, og for dette har jeg valgt å bruke intraklasse-korrelasjonskoeffisienten ICC, variant 2,1, heretter ICC. ICC brukes ofte som indikasjon på reliabilitet mellom to eller flere grupper

skår på samme spørsmål eller fenomen (20). Den beskriver blant annet styrken på samsvaret av de to gruppene med data i motsetning til måling av likheten mellom parede observasjoner. Klassifiseringen ved fortolkning av ICC, det vil si styrken på grad av samsvar, er her valgt tredelt; <0.4 = svakt samsvar, $0.4-0.74$ = moderat samsvar, ≥ 0.75 = godt samsvar (19).

Enighet ble også analysert og visualisert ved bruk av et differanse-mot-gjennomsnitt-plott, Bland Altman-plott (19, 21, 58). Et Bland Altman-plott visualiserer på en god måte størrelsen på forskjellen mellom de to respondentene, spredningen samt outliers/ekstremverdier. Konfidensintervallet på 95 % enighet er lagt inn og ligger innenfor de to stiplede linjene på hver sin side av den hele linjen, som representerer mean for differansen.

For å se om de demografiske og sykdomsspesifikke data, påvirkningsvariablene; pasientens *Kjønn*, pasientens *Alder ved undersøkelse*, *Sykdomsvarighet* og *Legens vurdering av sykdomsaktivitet*, påvirker differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår, ble de kontinuerlige data dikotomisert med en cutoff ved median. Deskriptiv statistikk ved histogram og bokspott ble brukt for å sammenligne mean for differansen i de ulike kategorier. Uavhengig t-test ble brukt for å se om forskjellene mellom to grupper var signifikant, og 0.05 ble valgt som signifikansnivå. Testene er tosidige.

3.6 Etiske hensyn

Studien er en del av den norske valideringsstudien av JAMAR utført på OUS i perioden 2012-2013 og ingen nye opplysninger er innhentet for aktuelle studie. Det er derfor ikke knyttet noen direkte ulempe for deltakerne til denne studien.

Den norske valideringsstudien er godkjent av Regional Etisk Komité (REK) 7.11.2011 (Vedlegg 1). Det har ikke vært nødvendig med en ny søknad til REK for aktuelle studie, men studien er meldt til personvernombudet ved OUS og er godkjent i henhold til institusjonens interne retningslinjer for personvern og sikkerhet.

OUS' valideringsstudie er basert på skriftlig informert samtykke fra foreldre til pasienter fra 2 til 16 år (Vedlegg 2) samt eget samtykke for pasienter mellom 16 og 18 år (Vedlegg 3). Pasientene mellom 12 og 15 år fikk eget, alderstilpasset informasjonsskriv (Vedlegg 4). Informasjonsskrivenes innhold er i tråd med REK's krav til personvern og datasikkerhet.

Det er inkludert i informasjonsskrivet og samtykket at innsamlede data kan brukes til forskning og kvalitetssikring. Et nytt samtykke for denne studien er vurdert ikke å være nødvendig.

Da de som ble forespurt er pasienter med en kronisk sykdom og derfor ofte kommer på sykehuset og gjennom mange år, er det spesielt understreket i informasjonsskrivet at om de sier nei til å delta vil det ikke få noen konsekvenser for den videre oppfølgingen av deres sykdom. De opplyses også om at de kan trekke seg fra studien når som helst, og at all informasjon om dem vil aidentifiseres. Dato for sletting av alle data er oppgitt.

4 Resultater

4.1 Utvalget – demografiske og sykdomsspesifikke karakteristika

Totalt består utvalget av 52 komplette pasient/forelder-par (Tabell 2). Av pasientene var 38 (73 %) jenter, av foreldrene var 42 (81 %) kvinner. Pasientenes gjennomsnittsalder ved inklusjon var median 15 år, alder ved diagnosetidspunkt var median 7 år og gjennomsnittlig sykdomsvarighet ved inklusjon var median 8 år. I alt 31 pasienter (60 %) tilhørte undergruppen oligoartikulær JIA (fåledds barneleddgikt) eller polyartikulær revmatoid faktor negativ JIA (flerledds barneleddgikt). Pasientene hadde lav sykdomsaktivitet vurdert av lege (median = 1).

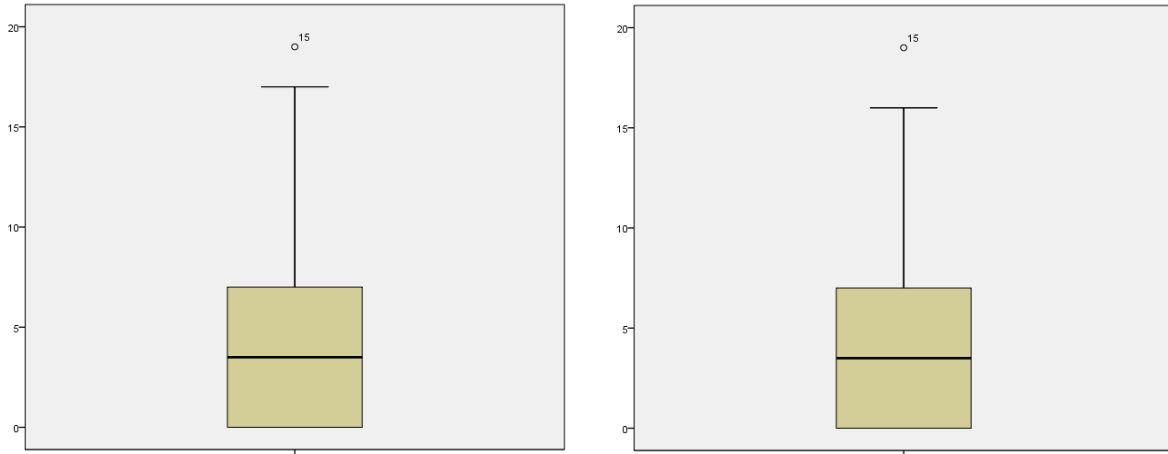
Tabell 2. Demografiske og sykdomsspesifikke karakteristika over utvalget (n=52 pasient/foreldrepar)	
Variabel	
Kjønn pasient, jente	38 (73)
Kjønn foreldre, kvinne	42 (81)
Alder pasient, år	15 (12-17)
Alder ved diagnose, år	7 (0-15)
Sykdomsvarighet, år	8 (0-16)
JIA undergruppe,	
1. Systemisk	5 (10)
2. Oligoartikulær JIA	17 (33)
3. Polyartikulær revmatoid faktor negativ JIA	14 (27)
4. Polyartikulær revmatoid faktor positiv JIA	2 (4)
5. Psoreasisartritt	3 (6)
6. Entesittrelatert artritt	5 (10)
7. Udifferensiert artritt	6 (11)
Legens vurdering av sykdomsaktivitet (VAS)	1 (0-7)
Tallene er n (%) eller median (range)	
VAS: visuell analog skala	

4.2 Pasientenes og foreldrenes skår

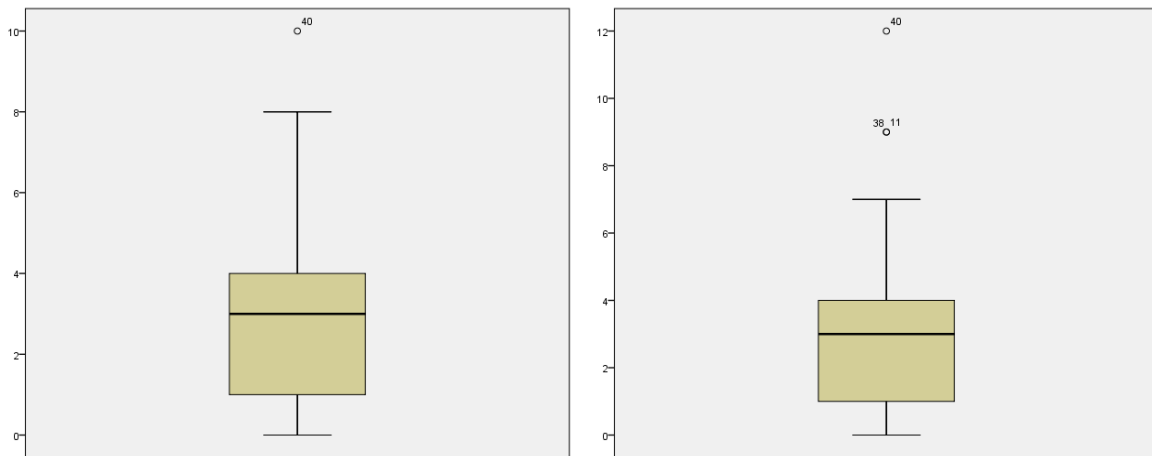
Tabell 3 viser pasientenes og foreldrenes skår for de syv avhengige variablene. For alle måleverktøyene gjelder at jo lavere skår jo mindre problemer og bedre funksjon og livskvalitet

Ingen av dataene var klart normalfordelte. Histogram over alle syv variabler viser at alle har tyngdepunktet godt til venstre på skalaen med hale mot høyre, det vil si lite plager, god funksjon og livskvalitet.

Boksplot over pasientenes og foreldrenes skår hver for seg viser få outliers. *Fysisk funksjon sumskår* har en outlier som gjelder samme person hos begge grupper, og *Livskvalitet psykososial helse* har en outlier hos pasientene og tre hos foreldrene. Det er ingen ekstremverdier (Figur 3 og 4).

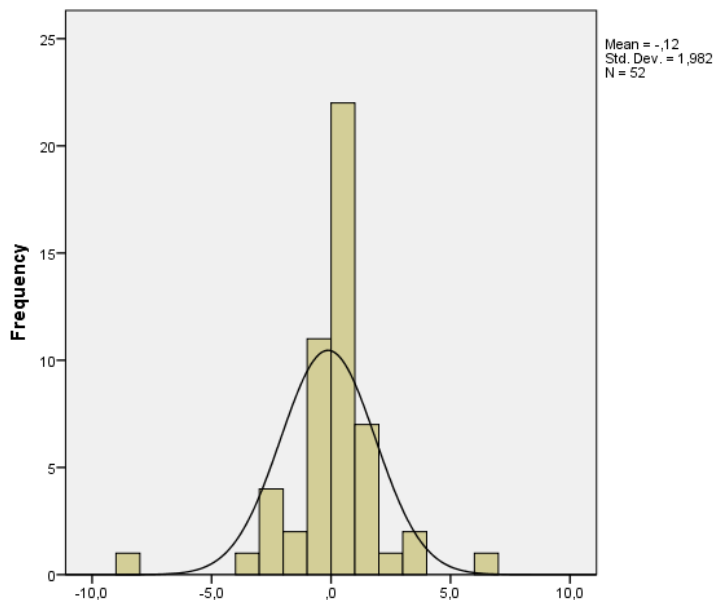


Figur 3. Boksplot over pasientenes og foreldrenes skår for *Fysisk funksjon sumskår*.

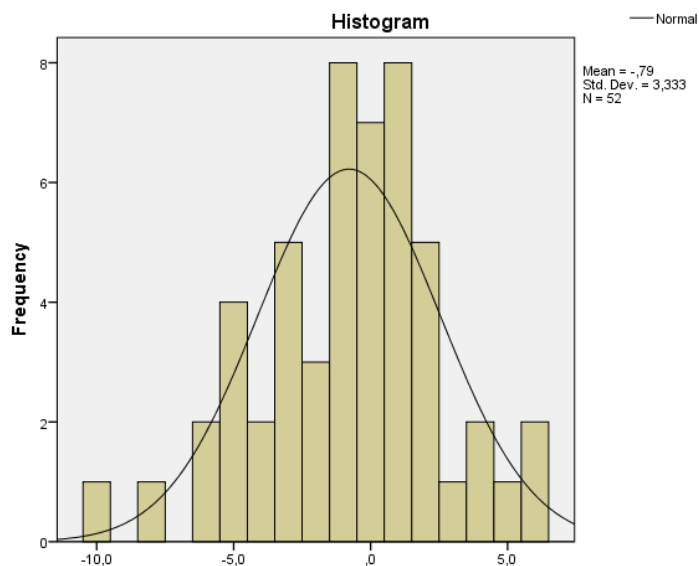


Figur 4. Boksplot over pasientenes og foreldrenes skår for *Livskvalitet psykososial helse*.

Deskriptiv statistikk (histogram og boksplo) over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår, viser normalfordeling på alle variablene. Her vist ved histogram over variablene med minst (selvrapportert *Sykdomsaktivitet*) og størst (*Livskvalitet sumskår*) differanse (Figur 5 og 6).

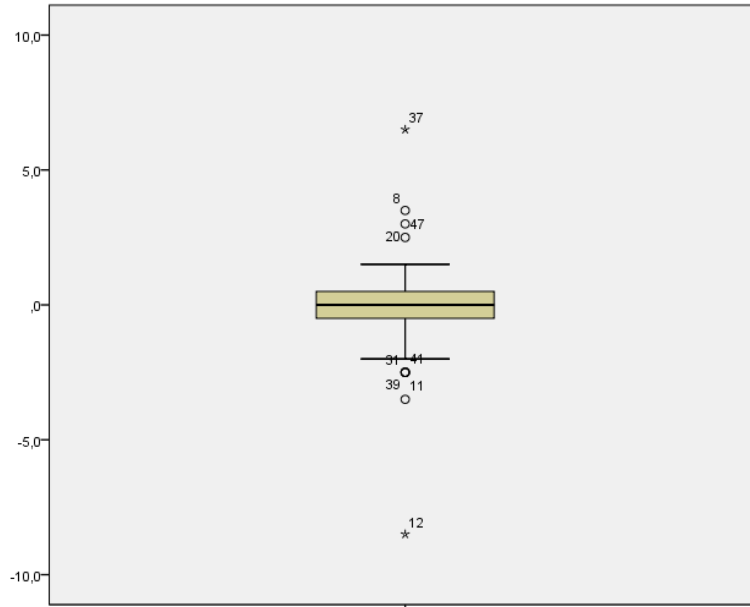


Figur 5. Histogram over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for selvrapportert *Sykdomsaktivitet*.

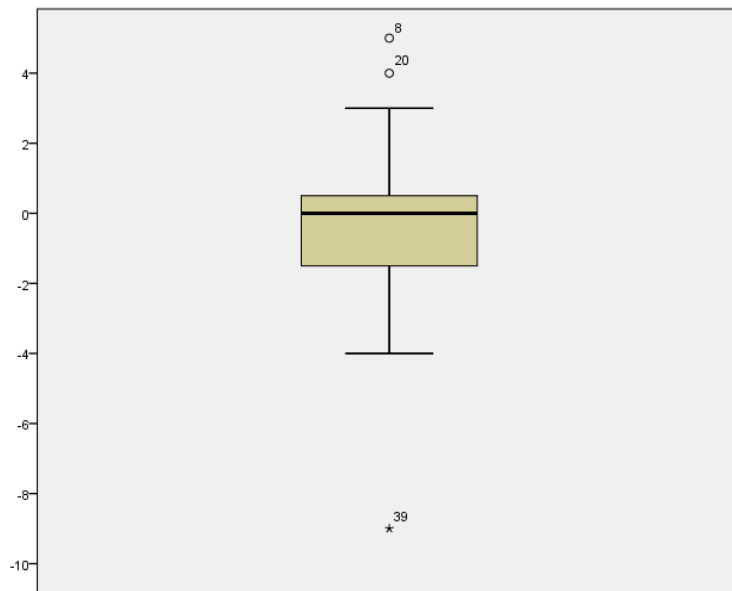


Figur 6. Histogram over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for *Livskvalitet sumskår*.

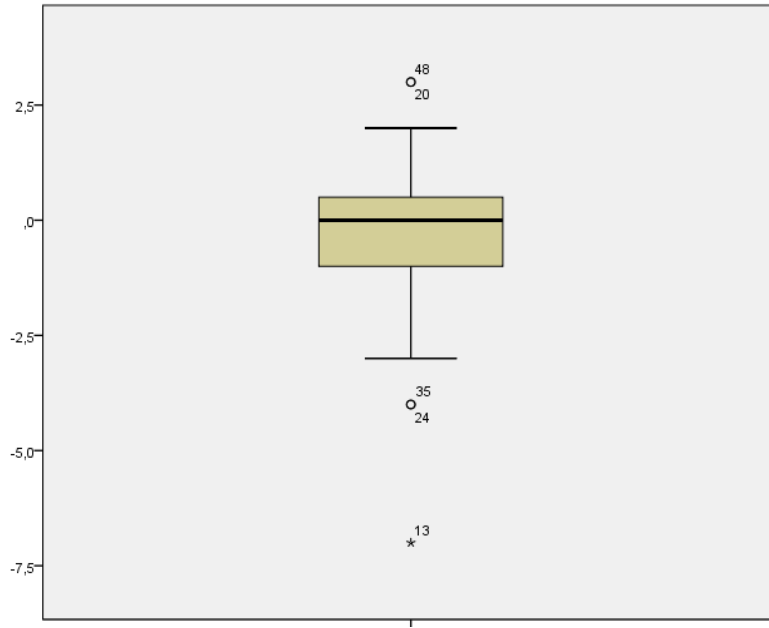
Boksplot over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår viser outliers på alle variabler og ekstremverdier på *Sykdomsaktivitet*, *Fysisk funksjon sumskår*, *Livskvalitet fysisk* og *psykososial helse* (Figur 7-10).



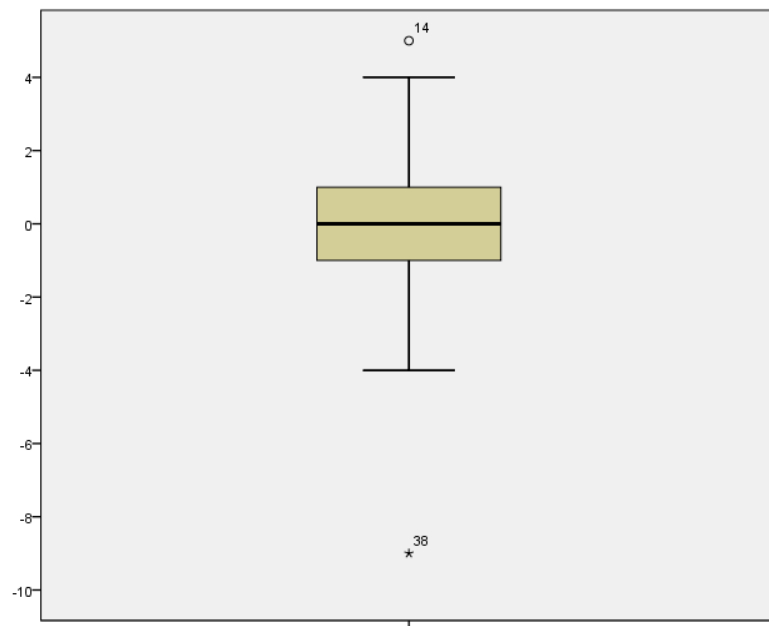
Figur 7. Boksplot over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for selvrappert *Sykdomsaktivitet*.



Figur 8. Boksplot over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for *Fysisk funksjon sumskår*.



Figur 9. Boksplot over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for *Livskvalitet fysisk helse*.



Figur 10. Boksplot over differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår for *Livskvalitet psykososial helse*.

Pasientene og foreldrene skårer (Tabell 3) generelt lavt på variablene *Velbefinnende*, *Fysisk funksjon* og *Fysisk og Psykososial helse*, det vil si de rapporterer å ha god fysisk funksjon og god fysisk og psykososial livskvalitet målt med aktuelle verktøy. For *Smerte* og *Sykdomsaktivitet* derimot skårer de moderat.

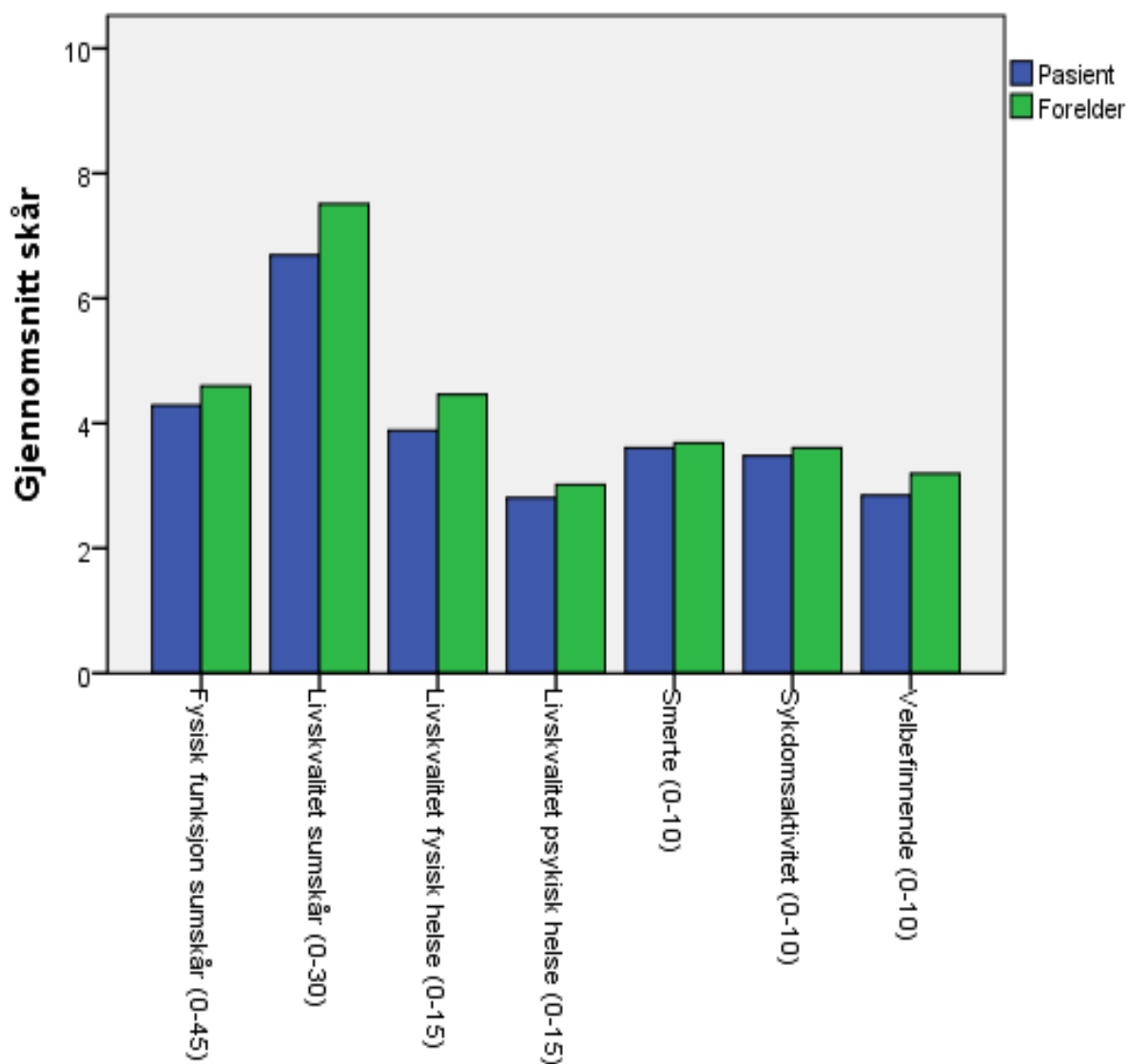
Utrekning av gjennomsnitt for differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår viser at den er minst for selvrapportert *Sykdomsaktivitet* og *Smerte*, og størst for *Livskvalitet fysisk helse*, der differansen er signifikant ($p=0.034$), se Tabell 3.

Dataene viser også at fedrene rapporterer mindre problemer og bedre funksjon og livskvalitet på selvrapportert *Sykdomsaktivitet*, *Fysisk funksjon sumskår* og *Livskvalitet psykososial helse* enn mødrene, og at fedrene rapporterer likt med mødrene på *Smerte* og *Velbefinnende*, mens fedrene har høyere skår enn mødrene på *Livskvalitet fysisk helse*. Fedrene har mindre range på alle variablene i forhold til både pasientene og mødrene, det vil si ingen fedre rapporterer maksimal skår like høyt som pasientene eller mødrene.

Tabell 3. Oversikt over pasientenes og foreldrenes skår for valgte delkomponenter av JAMAR samt mean for differansen.

Variabel	Pasienter N=52	Foreldre N=52	Mor / Far N=42 / 10	**Differansen pasienter/foreldre	p-verdi
Smerte (0-10)	3,5 (0-10) 3,6 (2,9)*	3,5 (0-8,5) 3,7 (2,6)*	3,5 (0-8,5) / 3,5 (0-7,5)	-0.08 (1,0)	0.528
Sykdomsaktivitet (0-10)	3,5 (0-9) 3,5 (2,8)*	2,8 (0-10) 3,5 (2,7)*	3,3 (0-10) / 2,0 (0-7,5)	0.03 (1,6)	0.897
Velbefinnende (0-10)	2,5 (0-8) 2,9 (2,5)*	2,8 (0-9) 3,0 (2,6)*	3,0 (0-9) / 3,0 (0-7)	-0.20 (2,0)	0.519
Fysisk funksjon sumskår (0-45)	3,5 (0-19) 4,3 (4,5)*	3,5 (0-19) 4,6 (4,9)*	3,5 (0-19) / 3,0 (0-13)	-0.31 (2,3)	0.330
Livskvalitet sumskår (0-30)	7,0 (0-17) 6,7 (4,7)*	7,0 (0-16) 7,5 (4,9)*	7,0 (0-16) / 7,0 (0-13)	-0.79 (3,3)	0.094
Livskvalitet fysisk helse (0-15)	3,0 (0-12) 3,9 (3,2)*	4,0 (1-12) 4,5 (3,2)*	4,0 (0-12) / 4,5 (0-9)	-0.58 (2,0)	0.034
Livskvalitet psykososial helse (0-15)	3,0 (0-10) 2,8 (2,5)*	3,0 (0-12) 3,0 (2,8)*	3,0 (0-12) / 2,5 (0-6)	-0.21 (2,3)	0.515
<p><i>Median (range) *Mean (SD) **Mean (SD) for differansen</i> <i>Differansen er signifikant ved < 0.05 nivå (2-tailed)</i> <i>Skåringsskalaer: 0-10 skala (0=best, 10=verst); 0-45 totalskår (0=uten vansker, 3=klarer ikke); 0-30 totalskår(0=aldri, 3=hver dag); 0-15 totalskår (0=aldri, 3=hver dag)</i></p>					

Figur 11 illustrerer visuelt det som er vist i tabell 3; hvor lavt utvalget skårer, det vil si hvor lite plager, god funksjon og god livskvalitet de rapporterer samt at pasientene, som gruppe, generelt skårer noe lavere enn foreldrene, altså rapporterer at de har noe mindre plager, bedre funksjon og bedre livskvalitet enn foreldrene rapporterer.



Figur 11. Oversikt over gjennomsnittet for pasientenes og foreldrenes skår på valgte delkomponenter av JAMAR ved søylediagram.

4.3 Ulike mål for samsvar og resultater

4.3.1 Grad av samsvar

Intraklasse-korrelasjonskoeffisienten ICC varierte for de ulike variablene (Tabell 4); *Smerte*, *Sykdomsaktivitet*, *Fysisk funksjon sumskår* og *Livskvalitet fysisk helse* er i øvre del av ”godt samsvar”, mens *Velbefinnende* og *Livskvalitet psykososial helse* kun viser moderat samsvar. Vi fant ikke ”svakt samsvar” for noen av variablene.

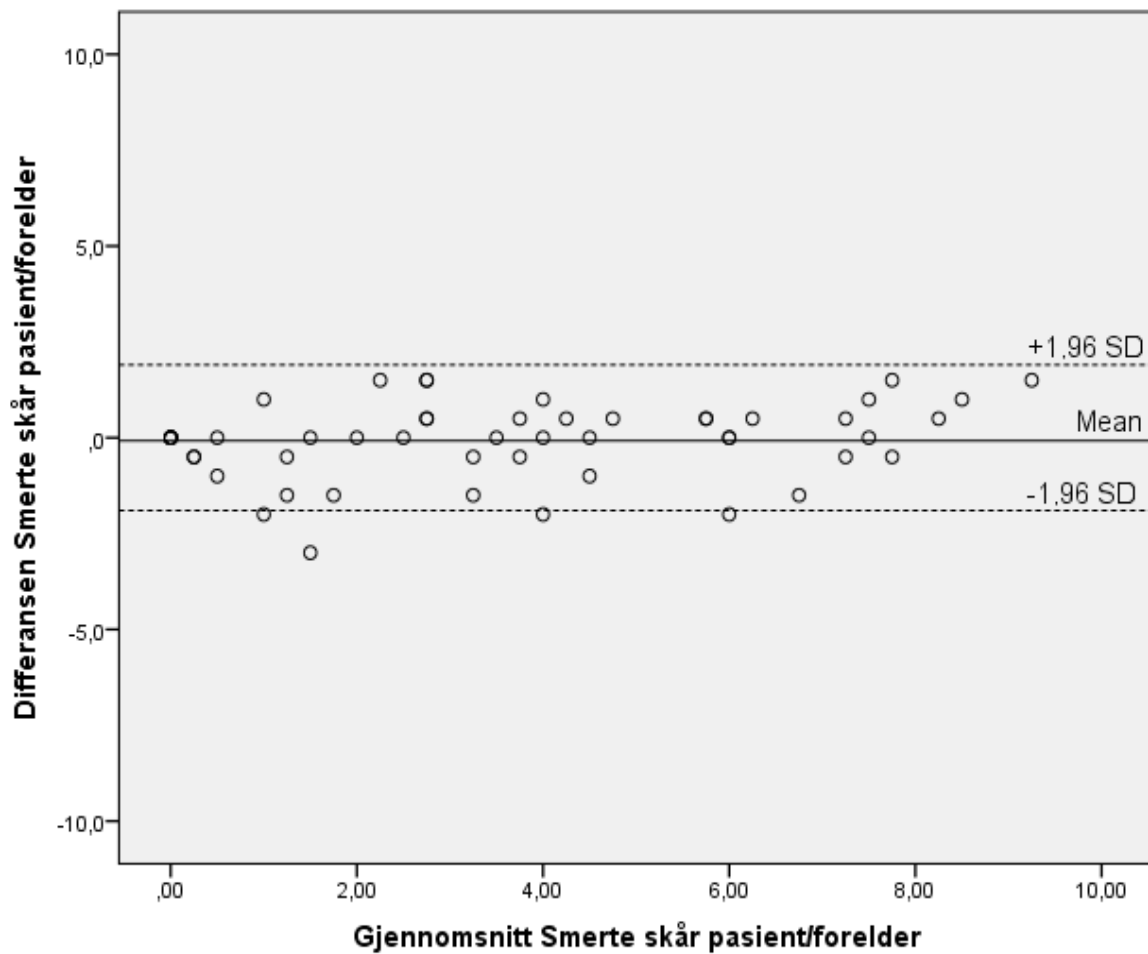
Tabell 4. Grad av samsvar mellom pasientenes og foreldrenes skår ved intraklasse-korrelasjonskoeffisienten ICC

Variabel	ICC (KI)	p-verdi
Smerte	0.936 (0.891 – 0.963)	p<0.001
Sykdomsaktivitet	0.832 (0.725 -0.900)	p<0.001
Velbefinnende	0.644 (0.453 – 0.779)	p<0.001
Fysisk funksjon sumskår	0.884 (0.807 – 0.932)	p<0.001
Livskvalitet sumskår	0.754 (0.607 – 0.851)	p<0.001
Livskvalitet fysisk helse	0.811 (0.686 – 0.888)	p<0.001
Livskvalitet psykososial helse	0.616 (0.414 – 0.760)	p<0.001

*Korrelasjon er signifikant ved < 0.05 nivå (2-tailed).
ICC: <0.4 = svakt samsvar, 0.4-0.74 = moderat samsvar, ≥0.75 = godt samsvar (Garcia-Munitis et al, 2006).*

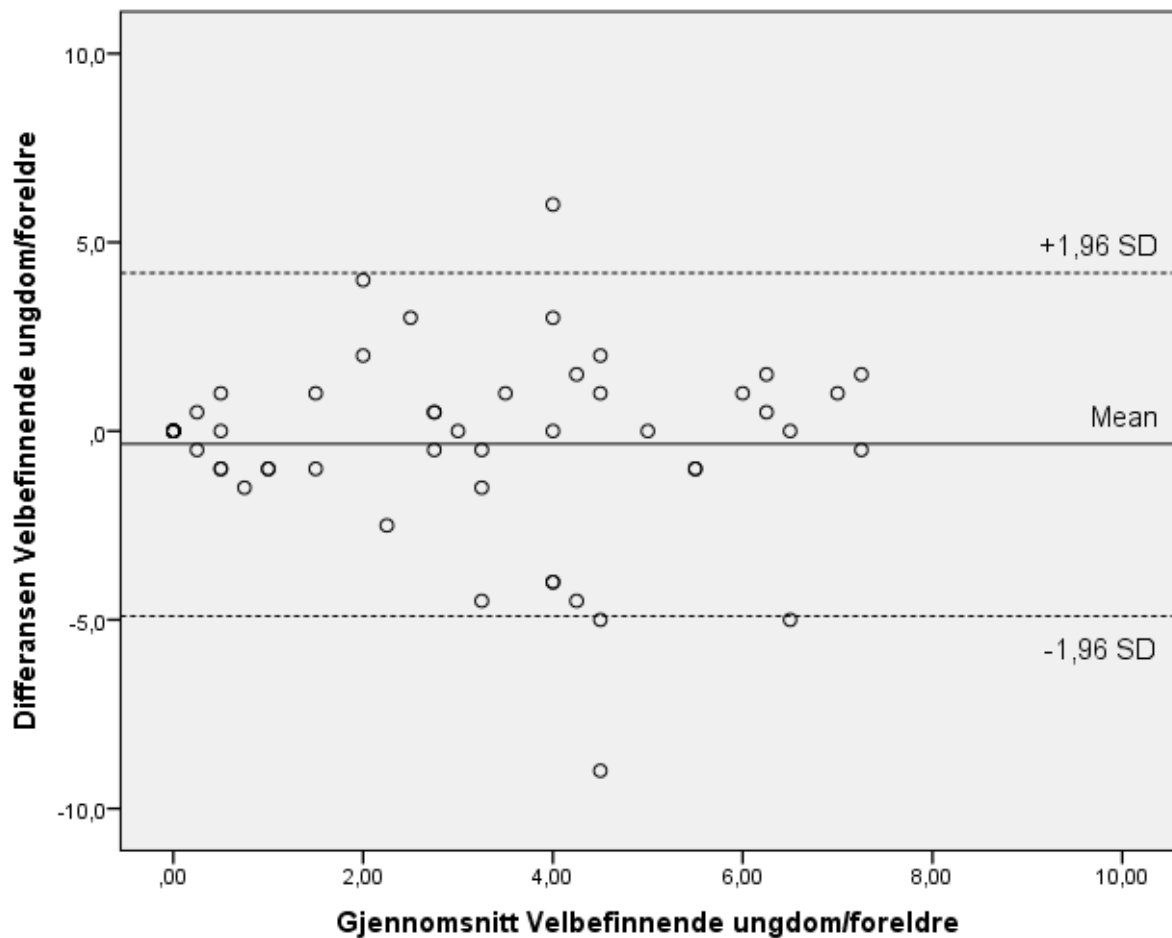
Bland Altman-plott er tatt med for to variabler; *Smerte* (Figur 12) som på en tydelig måte viser god styrke på samsvaret (ICC 0.936) og for *Velbefinnende* (Figur 13) som viser kun moderat styrke på samsvaret (ICC 0.664).

Figur 12 over *Smerte*, som eksempel på ”godt samsvar”, viser at mean for differansen ligger tett opp til 0, det vil si tilnærmet fullt samsvar, det er god samling rundt mean for differansen og liten avstand mellom samsvarsgrensene. Det er få av differansene mellom pasient/foreldrene som ligger utenfor ± 1.96 standardavvik.



Figur 12. Bland Altman-plott over differansen mellom pasientens og forelderens skår på *Smerte* mot gjennomsnittet av begges skår der graden av samsvar er god (skala 0-10).

Figur 13 over *Velbefinnende*, som eksempel på ”moderat samsvar”, viser noe større avstand mellom 0 og mean, og mellom samsvarsgrensene, det vil si større spredning på dataene. Man ser også at spredningen antar en ”fiske-lignende” form som synliggjør at det er større samsvar ved lav og høy skår for variabelen *Velbefinnende* enn når skårene ligger mellom disse ytterpunktene.



Figur 13. Bland Altman-plott over differansen mellom pasientens og forelderens skår på *Velbefinnende* mot gjennomsnittet av begge skår der graden av samsvar er moderat (skala 0-10).

4.3.2 Retningen på skåringene

Det andre jeg ønsket å se på var retningen på skåringene; skårer pasientene mer plager, redusert funksjon og livskvalitet enn foreldrene, eller er det motsatt, eller varierer det i forhold til hvilke områder som skåres?

I denne studien viser resultatene at ved utregning av differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår, skårer foreldrene høyere enn pasientene, altså mer plager, redusert funksjon og livskvalitet på alle variablene bortsett fra på selvrapportert *Sykdomsaktivitet*, der pasientene og foreldrene skårer tilnærmet likt (Tabell 3).

4.3.3 Hva påvirker grad av samsvar

En av problemstillingene var å se på om ulike variabler påvirker grad av samsvar, som Kjønn, Alder ved undersøkelse, Sykdomsvarighet og Legens vurdering av sykdomsaktivitet.

Det er tidligere i besvarelsen beskrevet at foreldrene, som gruppe, generelt skårer høyere, altså rapporterer mer problemer enn pasientene som gruppe, på seks av syv variabler (Tabell 3 og Figur 11). Ved å se på differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår etter dikotomisering av de fire valgte påvirkningsvariablene, fant jeg en nyansering av dette bildet (Tabell 5).

For å se om Kjønn påvirket graden av samsvar undersøkte jeg om det var signifikant forskjell i differansen mellom foreldre og pasienter som var gutter og jenter, tilsvarende sammenlignet jeg foreldrene med pasientene inndelt i to grupper over og under median Alder, median Sykdomsvarighet og median Legens vurdering av sykdomsaktivitet.

Analysene viser (Tabell 5) at differansen mellom foreldre og pasient inndelt etter Kjønn er signifikant forskjellige for *Velbefinnende* med svakest samsvar mellom foreldrene og guttene. I tillegg fant jeg at jentene og foreldrene generelt rapporterer mer likt enn guttene og foreldrene, det vil si tilnærmet likt på fire av syv variabler. Guttene skårer lavere enn foreldrene på alle syv variabler, svarende til mindre plager, bedre funksjon og bedre livskvalitet enn det foreldrene rapporterer.

Når man deler inn etter Alder ved undersøkelse ($\leq 15 / > 15$) er det signifikante forskjeller mellom differansene for *Smerte* og selvrapportert *Sykdomsaktivitet* med svakest samsvar for de eldste pasientene (> 15 år). Det er også en tendens til at pasientene rapporterer mer

problemer, altså skårer høyere, enn foreldrene i gruppen ≤ 15 år på alle variabler bortsett fra *Livskvalitet sum og delskår* (det vil si på fire av syv variabler), mens i gruppen > 15 år tenderer foreldrene til å skåre høyere på alle variabler bortsett fra på *Livskvalitet psykososial helse*.

Ved inndeling i to grupper etter *Legens vurdering av sykdomsaktivitet* ($\leq 1 / > 1$) er det signifikant forskjell mellom differansene for *Smerte* med svakest samsvar mellom gruppen med lavest sykdomsaktivitet (≤ 1) og foreldrene. For gruppen med lav sykdomsaktivitet (≤ 1), rapporterer foreldrene mer problemer enn pasientene på alle variabler, bortsett fra på selvrapportert *Sykdomsaktivitet*, der det er tilnærmet likt. For gruppen med høyere sykdomsaktivitet (> 1) rapporterer pasientene noe mer problemer og redusert funksjon enn foreldrene på fire av syv variabler (*Smerte*, selvrapportert *Sykdomsaktivitet*, *Velbefinnende* og *Fysisk funksjon sumskår*).

Ved inndeling etter *Sykdomsvarighet* ($\leq 8 / > 8$ år) var det ikke signifikante forskjeller på differansene for noen av variablene, men foreldrene skårer høyere enn pasientene i begge grupper og på alle variabler, bortsett fra for gruppen > 8 år når det gjelder selvrapportert *Sykdomsaktivitet* og *Velbefinnende*.

Generelt er det små tall når det gjelder disse resultatene, så bortsett fra det som viste signifikans er det mest snakk om tendenser.

Tabell 5. Differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår i forhold til pasientens kjønn, alder ved undersøkelse, sykdomsvarighet og legens vurdering av sykdomsaktivitet.												
Variabel	Kjønn N=14/38			Alder v us N=35/17			Sykdomsvarighet N=26/26			Legens vurdering av sykdomsaktivitet N=28/24		
	Gutt	Jente	p-verdi	≤15	>15	p-verdi	≤8	>8	p-verdi	≤1	>1	p-verdi
Smerte	-0.36	0.03	0.224	0.20	-0.65	0.003	-0.12	-0.04	0.785	-0.45	0.35	0.003
Sykdomsaktivitet	-0.36	-0.04	0.293	0.36	-0.65	0.031	-0.10	0.15	0.576	0.04	0.02	0.974
Velbefinnende	-1.21	0.18	0.035	0.03	-0.65	0.288	-0.52	0.14	0.273	-0.64	0.33	0.100
Fysisk funksjon sumskår	-0.29	-0.32	0.966	0.00	-0.94	0.160	-0.23	-0.38	0.808	-0.79	0.25	0.099
Livskvalitet sumskår	-0.71	-0.82	0.924	-1.06	-0.24	0.410	-0.89	-0.69	0.838	-0.86	-0.71	0.874
Livskvalitet fysisk helse	-0.43	-0.63	0.738	-0.63	-0.47	0.783	-0.62	-0.54	0.886	-0.68	-0.46	0.683
Livskvalitet psykososial helse	-0.29	-0.18	0.891	-0.43	0.24	0.340	-0.27	-0.15	0.860	-0.18	-0.25	0.914

Mean skår pasienter minus mean skår foreldre pr. dikotomiserte påvirkningsvariabel
Signifikans ved $p \leq 0.05$.
p-verdi i uthevet skrift indikerer der forskjellen mellom gruppene er statistisk signifikant

5 Diskusjon

I aktuelle studie har jeg sett på i hvilken grad det er samsvar mellom hva barn med barneleddgikt i alderen 12-18 år rapporterer og deres foreldre rapporterer på de ulike delkomponentene i den norske versjonen av skjemaet The Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report (JAMAR).

I tillegg ønsket jeg å se på i hvilken retning skårene går og om følgende parametere kan vise seg å påvirke grad av samsvar; kjønn, alder ved undersøkelse, sykdomsvarighet og legens vurdering av sykdomsaktivitet.

Studien viser at for dette utvalget:

- 1) er det godt samsvar mellom respondentene ved bruk av JAMAR, men at styrken på samsvaret varierer noe mellom delkomponentene
- 2) tenderer foreldrene til å rapportere mer plager, redusert funksjon og livskvalitet enn pasientene
- 3) synes både kjønn, alder ved undersøkelse og grad av sykdomsaktivitet vurdert av lege å påvirke grad av samsvar

I diskusjonen vil jeg reflektere over studiens metode og resultater og vurdere disse opp mot relevant litteratur, hovedsakelig innen barnerevmatologi.

5.1 En reliabilitets-studie?

Hva slags studie er egentlig en studie der man ser på grad av samsvar, her ment som grad av enighet mellom barn med barneleddgikt og foreldrene deres om hvordan barna har det, kartlagt ved utfylling av ett skjema, på ett tidspunkt?

Som nevnt er denne type studie enkelte steder beskrevet som en studie på inter-rater reliabilitet (7). Men kan man egentlig si det? Sier studiens resultat noe om verktøyets reliabilitet, eller synliggjør resultatene noe omkring forholdet mellom foreldre og barn, eller deres ulike syn på eller forventninger til konsekvensene av å leve med sykdommen? Eller kanskje begge deler?

De to respondentene er nært knyttet til hverandre, og det de skal rapportere handler om den ene av respondentene. Dette bringer inn mange forhold; de er i en tett relasjon som er mangefasettert. Faktorer som kan spille inn er bekymring hos forelder, at barn vil skåne foreldrene for bekymringer, barn som ikke vil skille seg ut, men være som alle andre eller at barn kan ha erfaringer med mulige fordeler ved å vise og fortelle om plager. Disse faktorene kan tenkes å innvirke på hvordan både foreldrene og pasientene svarer. Kan det tenkes at foreldrenes bekymringer bidrar til at de opplever at barna har mer plager, redusert funksjon og livskvalitet enn barna selv, eller motsatt; fanger ikke foreldrene opp belastningen og konsekvensene av sykdommen fordi de ikke følger godt nok med eller har god kommunikasjon med barna sine? Skårer barna lavt, bevisst eller ubevisst, for ikke å bekymre foreldrene, fordi de ikke vil ha mer medisiner, injeksjoner eller undersøkelser? Eller kan rapporteringen påvirkes av et ønske om å nedtone plagene for å være mer som andre er?

Dette gir ikke denne studien svar på, men jeg mener det er viktige faktorer å ta med i vurderingen av resultatene og ved diskusjonen omkring «the proxy problem».

5.2 Diskusjon av metoden

Studiedesign og fremgangsmåte for innhenting av data er bestemt av ansvarlig internasjonal forskningsorganisasjon (PRINTO), og denne studien baserer seg på allerede innsamlede data. Jeg vil likevel knytte noen kommentarer til studiedesign og innhenting av data i tillegg til egne metodevalg.

5.2.1 Design

Dataene er innhentet ved en observasjonell tverrsnittsstudie. I en slik studie er data samlet inn etter en protokoll fra en definert gruppe på ett bestemt tidspunkt og uten videre oppfølging. Fordeler ved dette studiedesignet er at det er relativt lite ressurskrevende, at muligheten for høy svarprosent er stor, at mange variabler kan undersøkes på samme tid og at resultatene kan gi grunnlag for hypoteser. Eksempler på ulemper ved designet er at det egner seg dårlig for kortvarige tilstander og at resultatene ikke kan brukes som informasjon om årsakssammenhenger (21).

Når det gjelder den norske valideringsstudien av JAMAR, som skulle gjøres i en travel klinisk hverdag, er et slikt studiedesign en effektiv måte å få inkludert mange på kort tid. Det at den foregår kun én gang og tar kort tid, gir også studiemedarbeiderne muligheten for å følge tett opp de som blir spurt om deltakelse, og de som er villige til å delta. All muntlig informasjon, utdeling av informasjonsskriv, samtykkeskjema og JAMAR samt innsamling av alle skjema foregikk på sykehuset i løpet av én eller to dager. Dette kan ha bidratt til at vi ikke mistet noen underveis. Når det gjelder den friske gruppen fikk vi inn kun 78 komplette skjema av 100 samtykker.

Ved studier på barneleddgikt, hvor pasientene kan ha gode og dårlige perioder, kan det være en ulempe å benytte seg av en metode der innsamlingen av data bare skjer på ett bestemt tidspunkt. Da kan man risikere ikke å fange opp konsekvensene av det svingende forløpet, som med stor sannsynlighet vil kunne påvirke svarene i et skjema som JAMAR. Flere studier, som Weiss et al., påpeker at det er høyst sannsynlig at grad av sykdomsaktivitet påvirker HRQoL (3).

Foreldrene og pasientene blir spurt om hvordan tilstanden har vært enten i «de siste fire ukene», «siste uken», «i dag» eller «for øyeblikket». Man kan tenke seg at hvordan det var for

fire uker siden har forsvunnet i hvordan det var i forrige uke eller i dag, hvis tilstanden har variert i denne perioden. Det kunne være interessant å se om mulige endringer i sykdomsaktivitet over tid også vil påvirke enigheten mellom det enkelte pasient/forelder-par. Repeterte tverrsnittundersøkelser kunne være et aktuelt alternativ for denne pasientgruppen.

5.2.2 Utvalget

Alle i studiens utvalg er pasienter som er kommet til kontroll og/eller behandling i spesialisthelsetjenesten. Dette kan medvirke til at utvalget kan være skjevt selektert med tanke på alvorlighetsgrad av sykdommen, noe som kan bidra til at det ikke er representativt for populasjonen. Barn med barneleddgikt kan ha lange perioder med lav sykdomsaktivitet og mange av disse vil da i flere år kun følges av fastlege eller lokalsykehus. På den annen side foregikk inkluderingen over et helt år, og i løpet av denne tiden er mange med barneleddgikt innom spesialisthelsetjenesten, også de som er i en rolig sykdomsperiode. Dette vil kunne veie opp for en mulig skjevhet. De aller fleste studier på barneleddgikt foregår i spesialisthelsetjenesten, så i den sammenhengen anses utvalget å være representativt for sammenligning med andre aktuelle studier.

Det vil alltid være noen som ikke følger opp innkalling til kontroll eller behandling; er det noen gjengangere her og hvem er disse som ikke møter opp? Tilhører de en spesiell sosial gruppe? Er det de med dårlig compliance? Kan det være en spesiell aldersgruppe? Dette vet vi ikke noe om når inkluderingen har foregått kun fra de som er kommet til spesialisthelsetjenesten, og man må være åpen for at dette kan gjenspeiles i studiens resultater.

Inklusjonen av pasient/forelder-gruppen i den norske valideringsstudien foregikk fortløpende, det vil si at alle pasienter som kom til kontroll eller behandling på enten poliklinikk, dagenhet eller sengepost, som var mellom 2 og 18 år og hadde en barneleddgiktsdiagnose i henhold til ILAR-kriteriene, ble forespurt. Inklusjonen ble stoppet da vi nådde 100 pasient/forelder-par. Kun 6 som ble spurt takket nei til deltakelse. Alle utdelte skjemaer ble samlet inn.

Selv om pasientene i valideringsstudien rapporterte selv fra syv års alder, er 12 år valgt som nedre grense for inkludering i aktuelle studie. Dette er gjort for å sikre best mulig kvalitet på dataene. Selv om JAMAR har en språktilpasset versjon for barn fra syv år, er det likevel sannsynlig, at jo yngre barnet er desto mer hjelp har de behøvd fra en voksen (12).

Utvalgets størrelse og alder for inklusjon skiller studiens utvalg fra de italienske og sveitsiske studiene på JAMAR, der resultatene i den italienske studien gjelder for aldersgruppen 2 til 18 år og for den sveitsiske studien for aldersgruppen 7-18 år.

Utvalget er relativt lite, 52 pasient/forelder-par, noe som bidrar til at man skal være noe forsiktig med å generalisere resultatene til en større populasjon. På den annen side vil dataene sikrere kunne generaliseres til aldersgruppen 12-18 år.

5.2.3 Innhenting av data

Dataene i valideringsstudien ble samlet inn på et sykehus i spesialisthelsetjenesten. Pasient og forelder satt i samme rom ved utfylling av skjemaet, og selv om de ble bedt om ikke å samarbeide, ble dette ikke sikret ved at for eksempel en studiemedarbeider var tilstede. Dette kan bidra til en uheldig systematisk feil, da det kan være en mulighet for at de har samarbeidet om svarene, spesielt de yngste barna og foreldrene. For om mulig å bedre kvaliteten på dataene ble derfor nedre alder for inklusjon i aktuelle studie satt til 12 år. Allikevel kan dette ha svekket resultatenes validitet. Metoden for innhenting av data var satt i studiens protokoll som var utarbeidet av PRINTO, slik at alle lands valideringsstudier av JAMAR har benyttet samme fremgangsmåte. Dette vil dermed ikke stå i veien for at funnene kan sammenlignes.

5.2.4 Variablene

Valg av variabler er gjort på bakgrunn av studiens problemstilling, nemlig hva som synes som aktuelle variabler for å se på grad av samsvar og hva som kan påvirke samsvaret. I tillegg er det interessant å kunne sammenligne resultatene med andre relevante studier. Dette gjelder hovedsakelig studier der JAMAR er brukt (den italienske (12) og den sveitsiske (4)), men også studier der det er brukt andre kartleggingsverktøy. Det vil hovedsakelig gjelde CHAQ for fysisk funksjon, da det er dette skjemaet som er mest brukt og som JAMAR skal være et alternativ til, samt ulike HRQoL-skjemaer. Grunnet denne besvarelsens hovedfokus, er det ikke gjort noen fullstendig sammenligning med disse.

Alle de demografiske og sykdomsspesifikke variablene er også med i den italienske og den sveitsiske studien; *Kjønn pasient, Alder pasient, Alder ved diagnose, Sykdomsvarighet, JIA undergruppe og Legens vurdering av sykdomsaktivitet*. Aktuelle studie har i tillegg med

Kjønn foreldre, mens de to andre studiene har med flere variabler som gir sykdomsspesifikke data.

For å få vite mer om utvalget kunne andre relevante variabler ha vært opplysninger om pasientenes etnisitet og foreldres utdanning, inntekt og bosted, som i Shaw et al. og Palermo et al. (10, 59). Andre studier har også med foreldres selvrapporing på egen HRQoL, som April et al. (46). Slike variabler ville kunne gi opplysninger om mulige kulturelle og sosiale forskjeller samt helserelevante forhold hos foreldrene, og disse forholdenes potensielle påvirkning på grad av samsvar. Studier har vist sprikende resultater når det gjelder om foreldrenes utdanning, sosioøkonomiske forhold samt psykososiale helse påvirker grad av enighet mellom foreldre og barn (6, 8, 10, 19, 45).

De syv delkomponentene av JAMAR, de uavhengige variablene, er valgt da disse gir kvantitative data og fordi de er de samme variablene som både den italienske og sveitsiske studien har sett på (4, 12). Den sveitsiske studien har ikke tatt med PRQL's delskår *Livskvalitet Fysisk helse* og *Livskvalitet Psykososial helse*, kun *Livskvalitet sumskår*. For å kunne sammenligne mine resultater med begge de andre JAMAR-studiene, er både delskår og sumskår variabler i aktuelle studie.

Da utvalget er relativt lite, ble påvirkningsvariablene *Alder ved undersøkelse*, *Sykdomsvarighet* og *Legens vurdering av sykdomsaktivitet* kun inndelt i to grupper ved median. Dette er en noe grov inndeling, og kan medføre at nyanser forsvinner. En ytterligere inndeling ville gi svært få case i hver gruppe og vanskeliggjøre statistiske analyser og tolkning av resultatene.

5.2.5 Analyser

Da hovedproblemstillingen i denne studien var å se på grad av samsvar mellom to grupper respondenter, ble intraklasse-korrelasjonskoeffisienten ICC samt Bland Altman-plot brukt. Dette er anbefalte analysemetoder for aktuelle problemstilling (7, 20, 21, 58) og brukt i flere av de studiene det er relevant å sammenligne med når det gjelder proxy-rapportering ved bruk av ulike kartleggingsverktøy (10, 19). ICC er en type korrelasjonskoeffisient anbefalt brukt når man for eksempel skal undersøke reproduserbarheten av kvantitative målinger utført av ulike observatører som måler samme fenomen, og er spesielt anbefalt for analysering av en gruppe i forhold til en annen gruppe der vi ikke kjenner «sannheten». Det hevdes også at en

høy korrelasjonskoeffisient alene ikke nødvendigvis betyr at samsvaret mellom respondentene er godt (21, 57, 58). Det vil et Bland Altman-plot kunne gi et mer beskrivende bilde av, hvor fordelingen av skårene, outliers og mulige ekstremverdier blir tydelig. Et eksempel er Figur 12 for *Smerte*, der ICC er veldig høy, der man ser at skårene er godt samlet og det er liten avstand mellom samsvarsgrensene. I Figur 13 for *Velbefinnende*, der ICC viser moderat samsvar etter denne studiens inndeling, men godt samsvar i følge andre inndelinger, blir den økte spredningen tydelig samt hvor skårene tenderer til å samle seg, i dette tilfellet ved lav og høy skår.

Da denne studien ble påbegynt, var bare den italienske studien på JAMAR publisert. De har kun gjort analyse av korrelasjon mellom foreldre og pasienter med Spearmans rho. Den sveitsiske studien har brukt andre analysemetoder i forhold til den italienske og aktuelle studie, noe som kompliserer sammenligningen.

I medisinsk litteratur finnes ulike inndelinger av styrken på korrelasjon, både tredeling og femdeling. I Eiser et al.'s review vises til blant annet Cohen's (1982) inndeling i tre grader for styrke (<0.30 =Poor, $0.30-0.50$ =Moderate, >0.50 =Good), som det vanligste, mens Altman D. viser til Landis and Koch's (1997) inndeling i fem grader (<0.20 =Poor, $0.21-0.40$ =Fair, $0.41-0.60$ =Moderate, $0.61-0.80$ =Good, $0.81-1.00$ =Very good) (7, 57). I aktuelle studie er det valgt en tredeling, <0.4 = svakt samsvar, $0.4-0.74$ = moderat samsvar, ≥ 0.75 = godt samsvar, da denne inndelingen er mye brukt i litteratur som er relevant for min studie (13, 19).

5.2.6 Etske betraktninger

Foreldrene og pasientene ble både muntlig og skriftlig informert om at deltakelse var helt frivillig, om at et nei ikke ville gå ut over den videre oppfølgingen på sykehuset og at de kunne trekke seg når som helst i løpet av studien. Man kan allikevel tenke seg at enkelte syntes det var vanskelig å si nei med tanke på at de med jevne mellomrom kommer tilbake til avdelingen for kontroller og behandling.

5.3 Diskusjon av resultatene

Det er gjennomgående godt samsvar (ICC 0.616 - 0.936) mellom pasientenes og foreldrenes rapporteringer, men studien domineres av små tall og små forskjeller. Det som kanskje er tydeligst i denne studien, er at foreldrene skårer mer plager, redusert funksjon og redusert livskvalitet enn pasientene på seks av syv variabler.

Jeg vil her diskutere resultatene vedrørende utvalget, pasientenes og foreldrenes skår samt de tre problemstillingene; grad av samsvar, retningen på skåringene og hva som kan påvirke samsvaret.

5.3.1 Utvalget

Andelen jenter i aktuelle studie (73 %) er tilsvarende fordelingen i andre studier hvor alle undergrupper av barneleddgikt tas med (24, 31, 46, 55). Kjønnfordelingen og grad av sykdomsaktivitet (*Legens vurdering av sykdomsaktivitet*, median 1) er tilsvarende utvalget i den italienske og sveitsiske studien på JAMAR (4, 12).

Fordelingen av pasienter i ulike JIA undergrupper viser tilnærmet samme tyngdepunkt som i den italienske og sveitsiske JAMAR- studien, ved oligoartikulær JIA og polyartikulær revmatoid faktor negativ JIA. Den sveitsiske studien hadde hele 36 % med entesittrelatert artritt mot 2,1 % i den italienske og 10 % i denne studien.

Debutalder og alder ved inklusjon (median 7 år og 15 år) i denne studien var samsvarende med den sveitsiske studien (median 7.9 år og 13.3 år), mens den italienske studien lå en del lavere (median 2.9 år og 8.8 år). Forskjellene i alder vil kunne forklares med at de tre studiene har hatt ulik nedre aldersgrense for inklusjon; Italia 2 år, Sveits 7-8 år og min studie 12 år.

Pasientene i mitt utvalg har betydelig lenger sykdomsvarighet (median 8 år) enn i de to andre JAMAR-studiene (Italia median 3.7 år og Sveits median 4.7 år) samt i andre relevante studier (19, 48), noe som også kan forklares med høyere nedre inklusjonsalder. Pasientens alder ved diagnostidspunktet (median 7 år) er i overensstemmelse med nordiske studier (31, 35).

Det er få PRO-studier og proxy-rapporteringer som har rapportert fordelingen av kjønn på foreldrene (7). Fordeling mor/far i aktuelle utvalg (81 % mødre) er funnet å være i overensstemmelse med flere studier, som i en australsk epidemiologisk studie og en engelsk

studie, begge med 83.2 % mødre (8, 10). I et såpass begrenset utvalg som i aktuelle studie, kan det være en mulighet for at den store forskjellen mellom fordelingen mødre/fedre som følger barnet på sykehus kan ha påvirket resultatene. Samtidig gjenspeiler fordelingen det man finner i mange studier der barn er pasienter, samt erfaringer fra klinikken, at det hovedsakelig er mødre som følger når barnet er på sykehus. Da mye av forskningen basert på PRO og HRQoL for pasienter foregår på sykehus eller andre institusjoner, og bildet domineres av at det er mødre som følger, blir fedrene mer «usynlige» som respondenter og som oppfølgere av barnet og dets sykdom. Swallow et al. har i sin review sett på fedres deltakelse i ivaretagelsen av egne barns langvarige sykdom (60). Deres funn bekrefter dette bildet. De finner holdepunkter for at det at far involverer seg påvirker positivt både fars, mors og barnets velbefinnende (well-being), og hvordan hele familien fungerer. Det vil være spennende å se om det rådende mønsteret etter hvert vil endre seg med endrede kjønnsrollemønstre og trygdeordninger som tilrettelegger for mer samvær mellom barn og fedre.

5.3.2 Skåringene

I aktuelle utvalg skårer pasient/foreldre-par lavt (nedre 1/3 del) på alle variabler bortsett fra for *Smerte* og *Velbefinnende*, der de skårer moderat. Pasientene i utvalget synes altså å ha god funksjon og god fysisk og psykososial livskvalitet, men noe smerter og redusert velbefinnende. Dette er sammenlignbart med den italienske og sveitsiske studien på JAMAR samt andre studier på tilsvarende pasienter de siste 10 årene (3, 4, 12, 61). I en svensk studie fra 2012 fant man liten grad av sykdomsaktivitet og god fysisk funksjon kartlagt ved CHAQ, men i motsetning til aktuelle studie, likevel tydelig redusert HRQoL kartlagt ved bruk av PedsQL (5).

En amerikansk studie som så på forskjell i PRO innen for de ulike undergruppene av barneleddgikt ved bruk av 11 punkts NRS for smerte, CHAQ for fysisk funksjon og PRQL for HRQoL, fant at pasienter med entesittrelatert JIA og udifferensiert artritt hadde mer smerter, redusert fysisk funksjon og livskvalitet enn de andre undergruppene (62). Disse undergruppene utgjorde 21 % i min studies utvalg, men det ble ikke sett på forskjeller mellom undergrupper av barneleddgikt i denne studien.

Det er stor likhet mellom pasientenes og foreldrenes median skår på alle variablene (Tabell 3), som de også fant i den italienske og sveitsiske JAMAR-studien (4, 12). Differansen mellom

pasientenes og foreldrenes skår som gruppe var signifikant for *Livskvalitet fysisk helse* og minst for selvrapportert *Sykdomsaktivitet* og *Smerte* (Tabell 3). Disse funnene vil jeg komme tilbake til i avsnittet 5.3.3.

Min studie viste også liten forskjell i median skår mellom fedrenes og mødrenes vurderinger av pasientene, bortsett fra for *Livskvalitet Fysisk helse*, der far skårer mer problemer, spesielt sammenlignet med pasientene. Fedrene skårer også tydelig lavere maksimal skår på alle variablene i forhold til både pasientene og mødrene. Det er fristende å dvele litt ved kjønnsperspektivet her.

Upton et al. viser i en review til studier som foreslår at både relasjonen mor/pasient og far/pasient samt om pasienten er gutt eller jente kan påvirke pasient/forelder-enighet ved kartlegging av HRQoL (1). Så egentlig snakker vi ikke bare om to perspektiver i selvrapportert HRQoL, pasientens og forelderens, men om flere. Fra pasientens perspektiv vil det inkludere datter/mor, sønn/mor, datter/far og sønn/far, og fra forelderens perspektiv tilsvarende, men i motsatt rekkefølge.

I følge Garcia-Munitis et al. har ingen studie sett på om far er en adekvat informant om barnets helse (19). Selv fant de i sin studie, der de så på enighet mellom pasienter, foreldre og legers kartlegging av smerte samt fysisk funksjon ved CHAQ hos barn med barneleddgikt, at det var stor enighet mellom mor og far, og de konkluderte med at fedre er gode informanter både om barnas smerte og fysiske funksjon. De føyer imidlertid til at hvis fedrene skal være informanter om barnets helse, bør de være daglig sammen med barnet. Det er fristende å legge til at det vel også bør gjelde for mødrene.

5.3.3 Grad av samsvar

Jeg fant gjennomgående godt samsvar mellom pasienter og foreldre ved ICC (0.754 - 0.936), men fant også at det er enkelte områder som kun viser moderat grad av samsvar ved ICC (0.616 – 0.664) (Tabell 4). Bland Altman-plot bekrefter funnene, vist for *Smerte* og *Velbefinnende* (Figur 12 og 13). Hadde studien brukt en annen styrkeinndeling for korrelasjonskoeffisienten, for eksempel Cohens inndeling, der alt over 0.50 regnes som godt samsvar, ville resultatene vist godt samsvar for alle variablene, selv om det er tydelig forskjell på samsvaret for de ulike variablene vurdert ut fra Bland Altman-plottene. Resultatene både avviker fra og bekrefter tidligere studier som finner best samsvar på lettest observerbare områder som fysisk funksjon og dårligst på mer subjektive områder (10, 48). Min studie avviker ved at det er størst samsvar for *Smerte*, og bekrefter ved at det er svakest samsvar for *Livskvalitet psykososial helse* og *Velbefinnende*.

Det er en utfordring å sammenligne resultater med andre studier på dette området, og dermed plassere JAMAR i «the proxy problem»-bildet, da det er stor variasjon både når det gjelder hvilke kartleggingsverktøy som er brukt og når det gjelder analysemetoder. Eiser et al. fant i sin review «Can parents rate their child's health-related quality of life?» at enighet var avhengig av hvilket måleverktøy som ble brukt og hvilket område som ble kartlagt (7). Dette gjenspeiler seg i aktuell litteratur som viser stor variasjon i grad av enighet mellom pasient og foreldre ved PRO og HRQoL-kartlegging. Shaw et al. viser til ulike studier som har funnet ingen enighet, lav enighet på smerte, moderat til god enighet på generell helse, moderat til svært god på fysisk funksjon og moderat for HRQoL (10). Forfatterne hevder at nevnte studier bekrefter den generelle oppfatningen om at det hovedsakelig er god enighet mellom foreldre og barn når det gjelder lett observerbare fenomen som fysisk funksjon og mindre enighet om mer subjektive områder som velbefinnende, smerte og psykososial helse (8). Eiser et al. derimot, finner begrensede bevis for dette (7). Upton et al. diskuterer i sin review om enighet mellom foreldre og pasienter påvirkes av type diagnose; fysisk funksjon er et utsatt område for barn med barneleddgikt og det kan bidra til at grad av enighet er større her, i motsetning til barn med diabetes, der fysisk funksjon er mindre påvirket og grad av enighet er lav. De foreslår at årsaken til høy grad av enighet kan være at foreldrene er mest involvert i de områdene som er mest påvirket av aktuelle sykdom (1).

I motsetning til funn fra flere andre studier, viser denne studien best korrelasjon for *Smerte* (ICC 0.936) (10, 48). Dette støttes av den italienske studien på JAMAR der smerte hadde

høyeste korrelasjonskoeffisient ($r=0.83$). De biologiske medikamentene fører for mange pasienter til betydelig redusert sykdomsaktivitet og bedret fysisk funksjon, mens smerte synes å forbli et stort problem for mange (42). Kan det tenkes at det høye samsvaret for smerte i aktuelle studie gjenspeiler denne utviklingen, noe som vil være i tråd med det Upton et al. (1) foreslår?

Noen studier har vist at evnen til å rapportere smerte delvis vil avhenge av barnets kognitive evner, og dermed også av alder (19). Det kan være en mulighet for at aktuelle utvalgs høye alder (median 15) kan ha medvirket til det sterke samsvaret. Jeg har ikke kommet over andre studier som har benyttet 21-punkts sirkel VAS til å vurdere smerte, bortsett fra de to andre JAMAR-studiene (4, 12). Det kan tenkes at flere svarmuligheter og illustrasjon ved endepunktene (smile/smertepreget ansikt) har bidratt til det gode samsvaret.

Differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår var signifikant kun for *Livskvalitet fysisk helse* ($p=0.034$) (Tabell 3). I den italienske og den sveitsiske JAMAR-studien er kun median for pasientenes og foreldrenes skår registrert, og differansen mellom gruppene er ikke signifikant for noen av variablene.

Ellers var resultatene i stor grad i overensstemmelse med det man finner i relevante studier; best samsvar på det som er lettest å observere, som *Fysisk funksjon* og *Livskvalitet fysisk helse* (ICC 0.811 og 0.884), og svakere samsvar på de mer subjektive områdene som *Livskvalitet psykososial helse* og *Velbefinnende* (ICC 0.616 og 0.664), tilsvarende som i den italienske og sveitsiske JAMAR-studien (4, 10, 12).

5.3.4 Retningen på skårene

Differansen mellom pasientenes og foreldrenes skår viser at pasientene skårer gjennomgående lavere, altså mindre plager, bedre funksjon og livskvalitet, enn foreldrene, tydeligst for *Livskvalitet Fysisk helse*. På selvrapportert *Sykdomsaktivitet* skårer de tilnærmet likt. Foreldrene tenderer altså til å vurdere konsekvensene av å leve med barneleddgikt som verre enn sine barn.

Det samme bildet tegner seg i den italienske JAMAR-studien, mens den sveitsiske studien nøyer seg med å vise til at foreldrene både rapporterer høyere og lavere enn pasientene (4, 12). Begge disse funnene bekreftes i andre studier, der det er brukt andre verktøy for kartlegging av HRQoL; på samsvar mellom ungdom med barneleddgikt og foreldre (10) og kronisk syke ungdommer og foreldre (6). Studiene viser at foreldrene både rapporterer høyere og lavere i forhold til ungdommene, og at retningen på skårene varierer i forhold til hvilke områder som observeres og hvilke måleverktøy som er brukt (6, 7, 10).

5.3.5 Hva påvirker samsvaret

Ved kun å se på tallene i denne studiens resultater er tendensen at barnas *Kjønn*, *Alder* og *Legens vurdering av sykdomsaktivitet* påvirker samsvaret mellom pasientene og foreldrene ved bruk av JAMAR (Tabell 5), men tallene er små, og må tolkes med forsiktighet.

Kjønn: Min studies utvalg besto av 38 jenter (73%) og 14 gutter, og selv om dette gjenspeiler fordelingen mellom kjønn hos pasienter med barneleddgikt, vurderes dette som små tall i forhold til å kunne konkludere vedrørende kjønnsforskjeller. Imidlertid fant jeg at det var signifikant forskjell mellom foreldrene og guttene/jentene for variabelen *Velbefinnende* med best samsvar mellom jentene og foreldrene. Ellers viste tallene en tendens til at det var best samsvar mellom jentene og foreldrene, og foreldrene rapporterte mer plager, redusert funksjon og livskvalitet enn guttene på alle syv variabler i motsetning til på fire av syv variabler for jentene

Andre studier finner også at kjønn kan påvirke samsvaret. Shaw et al. fant at det var flest jenter i gruppen med størst enighet ved rapportering på fysisk funksjon og HRQoL (ved bruk av CHAQ og JAQQ), mens Lundberg et al. fant påvirkning, men i motsatt retning av aktuelle studie. De fant at det var tydelig dårligst samsvar mellom jentene og foreldrene på HRQoL målt med PedsQL (5, 10). Garcia-Munitis et al. kunne i sin studie fra 2006 ikke påvise noen

sammenheng mellom verken pasientens alder eller kjønn og uenighet med foreldrenes rapporteringer (19).

Alder: Studien viser at det er signifikant forskjell mellom foreldrene og gruppene inndelt etter alder over og under median 15 år for rapportering på *Smerte* og selvrapportert *Sykdomsaktivitet* med svakest samsvar mellom de eldste (>15 år) og foreldrene. Selv om det er små tall, er det også en tendens til at foreldrene rapporterer mer plager, redusert funksjon og livskvalitet enn pasientene på seks av syv variabler i den eldste aldersgruppen. For *Livskvalitet psykososial helse* derimot, rapporterer de over 15 år noe høyere enn foreldrene.

Andre studier finner også at alder påvirker enigheten og at den er redusert ved høyere alder (8, 46). Den italienske studien på JAMAR fant tydelig redusert enighet for *Livskvalitet psykososial helse* mellom barn over 15 år og foreldre, mens Vanoni et al. i den sveitsiske JAMAR-studien ikke fant holdepunkter for at uenighet i pasient/foreldre-parene økte med alderen (4, 12). April et al. finner i sin studie at det er større enighet på de psykososiale områdene mellom de yngre pasientene og foreldrene, og foreslår at dette kan skyldes at de eldre barna deler mindre med foreldrene sine, spesielt på psykososiale områder (46). En survey som så på grad av enighet mellom barn (12-19 år) med en kronisk sykdom og foreldre, fant at barna rapporterte bedre HRQoL enn foreldrene og konkluderer med at pasientens alder bør tas med i vurderingen av HRQoL-rapporter (6).

Legens vurdering av sykdomsaktivitet: Ved inndeling av pasientene etter grad av sykdomsaktivitet er det signifikant forskjell i samsvar mellom pasientenes og foreldrenes skår for *Smerte*. For gruppen med høyest sykdomsaktivitet (>1) er det en tendens til at pasientene skårer høyere enn foreldrene, mens for gruppen med lavest sykdomsaktivitet (<1) tenderer foreldrene til å skåre høyere enn pasientene. Igjen, hvis man kun ser på tallene, er skåringene når det gjelder *Livskvalitet fysisk og psykososial helse* tilnærmet like for begge gruppene, men det er tendens til at foreldrene skårer dårligere livskvalitet enn pasientene for begge gruppene.

April et al. fant også at grad av sykdomsaktivitet påvirker ved at det er bedre samsvar mellom pasienter og foreldre for smerte ved høy sykdomsaktivitet (46). Vanoni et al.'s studie viste mer uenighet når sykdomsaktiviteten var høy i motsetning til Shaw et al. som mente å finne holdepunkter for at grad av samsvar var størst ved ingen/mild eller høy sykdomsaktivitet (4, 10).

Både Eiser et al.'s og Upton et al.'s review på området konkluderer med at det ikke finnes tilstrekkelig antall studier til at man kan slå fast om pasientens kjønn, alder eller helsestatus påvirker enighet mellom pasient og foreldre ved rapportering på HRQoL (1, 7).

En svakhet ved studien er at den baserer seg på data som kan være påvirket av en systematisk feil, da det ikke ble kontrollert for at pasientene og foreldrene ikke samarbeidet. Det ville vært interessant å gjenta en slik studie der man sikret at pasientene og foreldrene ikke kunne påvirke hverandre ved utfylling av skjemaene.

Det ville også vært interessant å ha gjort en liknende studie på dataene fra UNN og St. Olavs Hospital for å se om man finner ulike resultater med utvalg fra andre steder i Norge. Det ville vært en styrke både i forhold til størrelsen på utvalget og representativiteten for den norske populasjonen, og dermed muligheten til å kunne generalisere til en større populasjon.

5.3.6 Avsluttende betraktninger

Det er fristende til slutt å filosofere over hva foreldre/pasient-rapportert utkomme egentlig er. Vet vi hva vi måler, finnes det en felles forstått definisjon av hva et slikt verktøy skal inneholde av komponenter som alle er enige om faktisk kartlegger det livskvalitet dreier seg om? Hva er livskvalitet, er det en fast størrelse? Kan det hende at kvantitativ metode er utilstrekkelig, bør man kombinere kvantitativ og kvalitativ metode ved undersøkelser av helserelatert livskvalitet? Det blir for mye for denne besvarelsen å se hva litteraturen sier om dette, men jeg våger meg på, som avslutning, å komme med et par kommentarer på to områder vedrørende selvrapporing og proxy-rapportering, spesielt når det gjelder ungdom.

Er det opplagt hva som er hensikten med et forelder-utfylt HRQoL-skjema? Dette bør man, både som kliniker og forsker, på forhånd ha tatt stilling til; ønsker man forelderens perspektiv på hvordan det er for barnet å leve med en sykdom eller er det en stand-in rapport, altså en proxy-rapport, på vegne av barnet man vil ha? Er man ute etter foreldreperspektivet, behøver kanskje ikke samsvaret være så godt for at skjemaet skal være godt. Er man derimot ute etter barnets perspektiv, vil det være avgjørende. For å si det med Upton et al.: « *the question should not be who is right, but what does each rater contribute to our understanding of paediatric HRQL* » (1).

Som helseperson har jeg ofte vært vitne til og også selv bidratt til, at det er foreldrene som blir spurt og hørt, men at det viser seg at pasienten opplever ting ganske annerledes enn det foreldrene uttrykker. Jeg må innrømme at noe av min interesse for å velge akkurat denne studiens problemstillinger har vært en bekymring for konsekvensene av at det ofte er foreldrenes erfaringer som kommer tydeligst frem, og jeg har lurt på om foreldrene har godt nok innblikk i hvordan barna deres egentlig opplever det å leve med barneleddgikt. Hvor mye av foreldrenes «eget liv» er blandet inn i det de formidler om barnet. Kan det tenkes at deres egne sykdoms- eller sykehuserfaringer spiller inn? Eller deres forventninger til barnet i forhold til noen idealer om fysisk aktivitet og prestasjoner? Ikke at dette ikke er viktig, men da skal man vite at det er det det er.

Denne mistenkeliggjøringen av foreldrene finner man igjen i litteraturen når proxy-rapportering diskuteres (8). Derfor mener jeg at det er viktig å ta stilling til hvem sitt perspektiv man ber om og tolker selvrapporteringsskjemaene ut fra.

Slik jeg ser det, behøver egentlig ikke målet med JAMAR å være at samsvaret mellom pasientene og foreldrene skal være så godt som mulig for at det skal være et godt selvrapporteringsverktøy til bruk i den kliniske hverdagen. Hadde problemstillingen ved bruk av JAMAR vært at man skal finne ut av om det er pasientenes rapportering eller foreldrenes som skal brukes som grunnlag for behandlingstiltak, ville dette vært av avgjørende betydning. Det er ikke noe som tyder på at det er slik JAMAR er tenkt brukt. Det tydeliggjøres ikke hvilket perspektiv foreldreutgaven er ment å synliggjøre, så min anbefaling er at vi i klinikken må bruke både pasientenes og foreldrenes JAMAR-skjemaer.

Ungdom med barneleddgikt er i en overgangsfase på mange områder, men spesielt i forhold til ivaretagelse av egen sykdom. Når de er 18 år, skal de over i voksenorientert helsetjeneste med alt hva det innebærer av endringer. Dette er det viktig at de blir forberedt på, får øvd seg på, og dette har helsepersonell et ansvar for å bidra til. Ett bidrag kan være å støtte opp under den gradvise selvstendigjøringen som må til for at ungdommene skal overta det ansvaret foreldrene har hatt for oppfølging av sykdommen. Et viktig ledd i dette kan være at ungdom får trening i og blir gitt muligheten for selv å rapportere på sin HRQoL. Ungdommenes egen rapportering vil også kunne gi helsepersonell viktig innsikt i deres perspektiv, noe som ungdommene bør merke at får effekt når de medisinske tiltakene skal vurderes og bestemmes.

6 Konklusjon

Denne studien har vist at det for det aktuelle utvalget er stor grad av samsvar mellom det barn med barneleddgikt skårer og det foreldrene deres skårer ved bruk av den norske versjonen av JAMAR som et PRO- og HRQoL-rapporteringsverktøy. Det kan forstås som at JAMAR kommer godt ut av «the proxy problem».

Hovedtendensen i min studie er at den bekrefter mye av det samme som i studier der de mest brukte kartleggingsverktøyene innen PRO- og HRQoL-kartlegging ved barneleddgikt er brukt, ved å vise størst enighet på lettest observerbare områder som fysisk funksjon og helse og mindre enighet på de psykososiale områdene. Det er hovedsakelig to ting som synes å skille denne studien fra andre studier på PRO og HRQoL; den høye graden av samsvar for smerte og at foreldrene konsekvent rapporterer mer plager, mer redusert fysisk funksjon og livskvalitet enn pasientene.

Studien har også vist at resultatene i hovedsak er i overensstemmelse med den italienske og sveitsiske studien på JAMAR. Funn både i den aktuelle studien og den sveitsiske studien tydeliggjør viktigheten av at både pasientenes og foreldrenes perspektiv, hver for seg, tas med. Min studie viser at det kan synes å være spesielt viktig for de psykososiale områdene.

Arbeidet med forbedring av PRO og kartlegging av HRQoL innen barnerevmatologi er på langt nær ferdig når det gjelder blant annet utvikling av kartleggingsverktøy, valg av kartleggingsverktøy i ulike studier og analysemetoder. Brukermedvirkning i alle stadier av en forskningsprosess er stadig mer aktuelt, og et viktig bidrag til å øke kvaliteten kan være at barn og unge med barneleddgikt og deres foreldre, er involvert i utviklingen av spørsmålene i et selvrapporteringskjema.

Jeg vil tro vi bare har sett begynnelsen på et sentralt område innen helsefaglig forskning, og det skal bli spennende å følge den videre utviklingen!

“We should explore new methods to incorporate true, individual, subjective patient valuations in our measurement tools, if, in fact, we purport to measure QoL/HRQL”(63).

Referanser

1. Upton P, Lawford J, Eiser C. Parent-child agreement across child health-related quality of life instruments: a review of the literature. *Quality of life research : an international journal of quality of life aspects of treatment, care and rehabilitation*. 2008 Aug;17(6):895-913.
2. Eiser C, Morse R. The measurement of quality of life in children: past and future perspectives. *Journal of developmental and behavioral pediatrics : JDBP*. 2001 Aug;22(4):248-56.
3. Weiss PF, Klink AJ, Faerber J, Feudtner C. The pediatric rheumatology quality of life scale: validation of the English version in a US cohort of juvenile idiopathic arthritis. *Pediatric rheumatology online journal*. 2013;11(1):43. Epub 2013/11/12.
4. Vanoni F, Suris JC, von Scheven-Gete A, Fonjallaz B, Hofer M. The difference of disease perception by juvenile idiopathic arthritis patients and their parents: analysis of the JAMAR questionnaire. *Pediatric rheumatology online journal*. 2016;14(1):2. Epub 2016/01/07.
5. Lundberg V, Lindh V, Eriksson C, Petersen S, Eurenus E. Health-related quality of life in girls and boys with juvenile idiopathic arthritis: self- and parental reports in a cross-sectional study. *Pediatric rheumatology online journal*. 2012;10(1):33. Epub 2012/09/19.
6. Sattoe JN, van Staa A, Moll HA. The proxy problem anatomized: child-parent disagreement in health related quality of life reports of chronically ill adolescents. *Health and quality of life outcomes*. 2012;10:10.
7. Eiser C, Morse R. Can parents rate their child's health-related quality of life? Results of a systematic review. *Quality of life research : an international journal of quality of life aspects of treatment, care and rehabilitation*. 2001;10(4):347-57.
8. Waters E, Stewart-Brown S, Fitzpatrick R. Agreement between adolescent self-report and parent reports of health and well-being: results of an epidemiological study. *Child: care, health and development*. 2003 Nov;29(6):501-9.
9. Morrow AM, Hayen A, Quine S, Scheinberg A, Craig JC. A comparison of doctors', parents' and children's reports of health states and health-related quality of life in children with chronic conditions. *Child: care, health and development*. 2012 Mar;38(2):186-95.

10. Shaw KL, Southwood TR, McDonagh JE. Growing up and moving on in rheumatology: parents as proxies of adolescents with juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis and rheumatism*. 2006 Apr 15;55(2):189-98.
11. Vetter TR, Bridgewater CL, McGwin G, Jr. An observational study of patient versus parental perceptions of health-related quality of life in children and adolescents with a chronic pain condition: who should the clinician believe? *Health and quality of life outcomes*. 2012;10:85.
12. Filocamo G, Consolaro A, Schiappapietra B, Dalpra S, Lattanzi B, Magni-Manzoni S, et al. A new approach to clinical care of juvenile idiopathic arthritis: the Juvenile Arthritis Multidimensional Assessment Report. *The Journal of rheumatology*. 2011 May;38(5):938-53.
13. Oliveira S, Ravelli A, Pistorio A, Castell E, Malattia C, Prieur AM, et al. Proxy-reported health-related quality of life of patients with juvenile idiopathic arthritis: the Pediatric Rheumatology International Trials Organization multinational quality of life cohort study. *Arthritis and rheumatism*. 2007 Feb 15;57(1):35-43.
14. Eiser C, Morse R. A review of measures of quality of life for children with chronic illness. *Archives of disease in childhood*. 2001 Mar;84(3):205-11.
15. Ruperto N, Ravelli A, Falcini F, Lepore L, Buoncompagni A, Gerloni V, et al. Responsiveness of outcome measures in juvenile chronic arthritis. Italian Pediatric Rheumatology Study Group. *Rheumatology (Oxford, England)*. 1999 Feb;38(2):176-80.
16. Moretti C VS, Pistorio A, Magni-Manzoni S, Ruperto N, Martini A ea. Relative responsiveness of condition specific and generic health status measures in juvenile idiopathic arthritis. *Ann Rheum Dis*. 2005;;64:257-61.
17. Flato B, Sorskaar D, Vinje O, Lien G, Aasland A, Moum T, et al. Measuring disability in early juvenile rheumatoid arthritis: evaluation of a Norwegian version of the childhood Health Assessment Questionnaire. *The Journal of rheumatology*. 1998 Sep;25(9):1851-8.
18. Selvaag AM, Flato B, Lien G, Sorskaar D, Vinje O, Forre O. Measuring health status in early juvenile idiopathic arthritis: determinants and responsiveness of the child health questionnaire. *The Journal of rheumatology*. 2003 Jul;30(7):1602-10.
19. Garcia-Munitis P, Bandeira M, Pistorio A, Magni-Manzoni S, Ruperto N, Schivo A, et al. Level of agreement between children, parents, and physicians in rating pain intensity in juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis and rheumatism*. 2006 Apr 15;55(2):177-83.

20. Carter R E, Lubinsky J, E D. Rehabilitation Research: Principles and Applications. Fourth ed. St. Louis, Missouri 63043: Elsevier Saunders; 2011. 503 p.
21. Laake P, Hjartåker A, Thelle D S, B VM. Epidemiologiske og kliniske forskningsmetoder. Oslo, Norge: Gyldendal Norsk Forlag AS; 2007. 549 p.
22. Pallant J. SPSS Survival Manual. 4th ed. Birkshire, England: Open University Press; 2013. 345 p.
23. Braut GS. Store medisinske leksikon 2009. Available from: <https://sml.snl.no/compliance>.
24. Flatø BV, O. "Epidemiologien ved juvenil idiopatisk artritt og andre artritter i barnealderen". Norsk Epidemiologi, . 2008;vol. 18(no. 1):pp. 93-8.
25. Cassidy PT, RE P. Chronic Arthritis in Childhood. Textbook of Pediatric Rheumatology. Fifth ed. Philadelphia, Pennsylvania: Elsevier Saunders; 2005. 792 p.
26. Minden K. Adult outcomes of patients with juvenile idiopathic arthritis. Hormone research. 2009 Nov;72 Suppl 1:20-5.
27. Selvaag AM, Flato B, Dale K, Lien G, Vinje O, Smerdel-Ramoya A, et al. Radiographic and clinical outcome in early juvenile rheumatoid arthritis and juvenile spondyloarthritis: a 3-year prospective study. The Journal of rheumatology. 2006 Jul;33(7):1382-91.
28. Flato B, Lien G, Smerdel A, Vinje O, Dale K, Johnston V, et al. Prognostic factors in juvenile rheumatoid arthritis: a case-control study revealing early predictors and outcome after 14.9 years. The Journal of rheumatology. 2003 Feb;30(2):386-93.
29. Petty RE, Southwood TR, Manners P, Baum J, Glass DN, Goldenberg J, et al. International League of Associations for Rheumatology classification of juvenile idiopathic arthritis: second revision, Edmonton, 2001. The Journal of rheumatology. 2004 Feb;31(2):390-2.
30. Ravelli A, Martini A. Juvenile idiopathic arthritis. Lancet (London, England). 2007 Mar 3;369(9563):767-78.
31. Berntson L, Andersson Gare B, Fasth A, Herlin T, Kristinsson J, Lahdenne P, et al. Incidence of juvenile idiopathic arthritis in the Nordic countries. A population based study with special reference to the validity of the ILAR and EULAR criteria. The Journal of rheumatology. 2003 Oct;30(10):2275-82.

32. Flato B, Hoffmann-Vold AM, Reiff A, Forre O, Lien G, Vinje O. Long-term outcome and prognostic factors in enthesitis-related arthritis: a case-control study. *Arthritis and rheumatism*. 2006 Nov;54(11):3573-82.
33. Gare BA, Fasth A. Epidemiology of juvenile chronic arthritis in southwestern Sweden: a 5-year prospective population study. *Pediatrics*. 1992 Dec;90(6):950-8.
34. Riise OR, Handeland KS, Cvancarova M, Wathne KO, Nakstad B, Abrahamsen TG, et al. Incidence and characteristics of arthritis in Norwegian children: a population-based study. *Pediatrics*. 2008 Feb;121(2):e299-306.
35. Andersson Gare B, Fasth A, Andersson J, Berglund G, Ekstrom H, Eriksson M, et al. Incidence and prevalence of juvenile chronic arthritis: a population survey. *Annals of the rheumatic diseases*. 1987 Apr;46(4):277-81.
36. Moe N, Rygg M. Epidemiology of juvenile chronic arthritis in northern Norway: a ten-year retrospective study. *Clinical and experimental rheumatology*. 1998 Jan-Feb;16(1):99-101.
37. Emery H. Pediatric rheumatology: what does the future hold? *Archives of physical medicine and rehabilitation*. 2004 Aug;85(8):1382-4.
38. Klepper SE. Exercise in pediatric rheumatic diseases. *Current opinion in rheumatology*. 2008 Sep;20(5):619-24.
39. Takken T, Van Brussel M, Engelbert RH, Van Der Net J, Kuis W, Helders PJ. Exercise therapy in juvenile idiopathic arthritis: a Cochrane Review. *European journal of physical and rehabilitation medicine*. 2008 Sep;44(3):287-97.
40. Selvaag AM, Aulie HA, Lilleby V, Flato B. Disease progression into adulthood and predictors of long-term active disease in juvenile idiopathic arthritis. *Annals of the rheumatic diseases*. 2016 Jan;75(1):190-5.
41. Nordal E, Zak M, Aalto K, Berntson L, Fasth A, Herlin T, et al. Ongoing disease activity and changing categories in a long-term nordic cohort study of juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis and rheumatism*. 2011 Sep;63(9):2809-18.
42. Bromberg MH, Connelly M, Anthony KK, Gil KM, Schanberg LE. Self-reported pain and disease symptoms persist in juvenile idiopathic arthritis despite treatment advances: an electronic diary study. *Arthritis & rheumatology (Hoboken, NJ)*. 2014 Feb;66(2):462-9.
43. Nordal E. Disease activity and outcome in juvenile idiopathic arthritis; a longitudinal cohort study in the Nordic countries. Tromsø, Norway: University of Tromsø; 2012.

44. Selvaag AMG. Disease course and risk factors in early chronic arthritis in childhood; A 3 year prospective controlled study. Oslo, Norway: University of Oslo; 2007.
45. Ravelli A, Viola S, Migliavacca D, Pistorio A, Ruperto N, Martini A. Discordance between proxy-reported and observed assessment of functional ability of children with juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatology (Oxford, England)*. 2001 Aug;40(8):914-9.
46. April KT, Feldman DE, Platt RW, Duffy CM. Comparison between Children with Juvenile Idiopathic Arthritis (JIA) and their parents concerning perceived Quality of Life. *Quality of life research : an international journal of quality of life aspects of treatment, care and rehabilitation*. 2006 May;15(4):655-61.
47. Varni JW, Limbers CA, Burwinkle TM. Parent proxy-report of their children's health-related quality of life: an analysis of 13,878 parents' reliability and validity across age subgroups using the PedsQL 4.0 Generic Core Scales. *Health and quality of life outcomes*. 2007;5:2.
48. Lal SD, McDonagh J, Baildam E, Wedderburn LR, Gardner-Medwin J, Foster HE, et al. Agreement between proxy and adolescent assessment of disability, pain, and well-being in juvenile idiopathic arthritis. *The Journal of pediatrics*. 2011 Feb;158(2):307-12.
49. Sawyer MG, Whitham JN, Robertson DM, Taplin JE, Varni JW, Baghurst PA. The relationship between health-related quality of life, pain and coping strategies in juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatology (Oxford, England)*. 2004 Mar;43(3):325-30.
50. Hersh AO, Salimian PK, Weitzman ER. Using Patient-Reported Outcome Measures to Capture the Patient's Voice in Research and Care of Juvenile Idiopathic Arthritis. *Rheumatic diseases clinics of North America*. 2016 May;42(2):333-46.
51. Revill SI, Robinson, J. O., Rosen, M., & Hogg, M. I. . "The reliability of a linear analogue for evaluating pain". *Anaesthesia*. 1976;vol. 31(no. 9):pp. 1191-8.
52. Shields BJ, Cohen DM, Harbeck-Weber C, Powers JD, Smith GA. Pediatric pain measurement using a visual analogue scale: a comparison of two teaching methods. *Clinical pediatrics*. 2003 Apr;42(3):227-34.
53. Filocamo G, Davi S, Pistorio A, Bertamino M, Ruperto N, Lattanzi B, et al. Evaluation of 21-numbered circle and 10-centimeter horizontal line visual analog scales for physician and parent subjective ratings in juvenile idiopathic arthritis. *The Journal of rheumatology*. 2010 Jul;37(7):1534-41.

54. Filocamo G, Sztajn bok F, Cespedes-Cruz A, Magni-Manzoni S, Pistorio A, Viola S, et al. Development and validation of a new short and simple measure of physical function for juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis and rheumatism*. 2007 Aug 15;57(6):913-20.
55. Filocamo G, Schiappapietra B, Bertamino M, Pistorio A, Ruperto N, Magni-Manzoni S, et al. A new short and simple health-related quality of life measurement for paediatric rheumatic diseases: initial validation in juvenile idiopathic arthritis. *Rheumatology (Oxford, England)*. 2010 Jul;49(7):1272-80.
56. Singh G, Athreya BH, Fries JF, Goldsmith DP. Measurement of health status in children with juvenile rheumatoid arthritis. *Arthritis and rheumatism*. 1994 Dec;37(12):1761-9.
57. Altman DG. *Practical statistics for medical research*. First ed. London: Chapman & Hall/CRC; 1997.
58. Bland JM AD. *Statistical methods for assessing agreement between two methods of clinical measurement*. *The Lancet*. 1986.
59. Palermo TM, Zebracki K, Cox S, Newman AJ, Singer NG. Juvenile idiopathic arthritis: parent-child discrepancy on reports of pain and disability. *The Journal of rheumatology*. 2004 Sep;31(9):1840-6.
60. Swallow V, Macfadyen A, Santacroce SJ, Lambert H. Fathers' contributions to the management of their child's long-term medical condition: a narrative review of the literature. *Health expectations : an international journal of public participation in health care and health policy*. 2012 Jun;15(2):157-75.
61. Ringold S, Wallace CA, Rivara FP. Health-related quality of life, physical function, fatigue, and disease activity in children with established polyarticular juvenile idiopathic arthritis. *The Journal of rheumatology*. 2009 Jun;36(6):1330-6.
62. Taxter AJ, Wileyto EP, Behrens EM, Weiss PF. Patient-reported Outcomes across Categories of Juvenile Idiopathic Arthritis. *The Journal of rheumatology*. 2015 Oct;42(10):1914-21.
63. Luca NJ, Feldman BM. Health outcomes of pediatric rheumatic diseases. *Best practice & research Clinical rheumatology*. 2014 Apr;28(2):331-50.

Vedlegg

Vedlegg 1: REK-godkjenning av valideringsstudien på JAMAR

Vedlegg 2: Informasjons- og samtykkeskriv til foreldre

Vedlegg 3: Informasjons- og samtykke skriv 16-18 år

Vedlegg 4: Informasjonsskriv 12-15 år

Vedlegg 5: JAMAR-skjemaet – barnets utgave

Vedlegg 6: JAMAR-skjemaet – foreldreutgaven