

Funksjon og livskvalitet hos voksne med reduksjonsdefekt i armene.

En tverrsnittsstudie

Anne-Karin Vik



Masteroppgave i helsefagvitenskap

Avdeling for helsefag

Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

UNIVERSITETET I OSLO

Høsten 2018

Funksjon og livskvalitet hos voksne med reduksjonsdefekt i armene.

© Forfatter

År 2018

Funksjon og livskvalitet hos voksne med reduksjonsdefekt i armene. En tverrsnittsstudie.

Anne-Karin Vik

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

Sammendrag

Hensikt: Kartlegge selvrapporterte symptomer og funksjonell status, med fokus på fysisk funksjon og livskvalitet hos voksne med medfødt reduksjonsdefekt i armene (RDA) og sammenligne med den norske generelle befolkningen. Videre, sammenligne funksjon og livskvalitet innad i RDA-gruppen mellom protesebrukere og ikke-protesebrukere som har mangel på både underarm og hånd.

Teoretisk forankring og metode: Kvantitativ metode. En tverrsnittsstudie der voksne ≥ 18 år med RDA tilknyttet Oslo universitetssykehus sammenliknes med en kontrollgruppe voksne ≥ 18 år trukket fra den norske generelle befolkningen med hensyn til funksjon målt med KvikkDASH; den norske kortversjonen av spørreskjemaet DASH (dysfunksjon i arm, skulder og hånd) (skala fra 0-100 der lave tall indikerer god funksjon) og livskvalitet målt med de norske versjonene av spørreskjemaene SWLS (Satisfaction with Life Scale)(skala fra 1-7 der høye tall indikerer høy tilfredshet med livet) og EQ-5D-5L (helse relatert livskvalitet)(VAS skala fra 0-100 der høye tall representerer den best tenkelige helsen). Resultatene ble analysert ved hjelp av deskriptiv statistikk og ikke-parametriske tester (MWU/KW).

Resultater: Studien inkluderte 107 respondenter med unilateral (88 %) eller bilateral (12 %) RDA; medfødt mangel på hånd og fingre ($n=48$, 45 %) og medfødt mangel på både underarm og hånd ($n=25$, 23 %) forekom hyppigst. Median alder var 27 år (Q1:22, Q3:36; min/maks:18-69) og 48 % var menn. Videre inkluderte studien 341 kontroller fra den generelle befolkningen; median alder 48 år (Q1:35, Q3:61; min/maks:18-74), 49 % var menn. RDA-gruppen rapporterte nedsatt funksjon i arm, skulder og hånd (median = 13), sammenliknet med kontrollgruppen (median = 2). Forskjellen var signifikant med en liten effekt størrelse ($r = 0,36$). Det var ingen forskjell på livskvalitet; begge gruppene skårer høyt på tilfredshet med livet (median = 5,4) og egenopplevd helse (median = 80). Armprotese var tilpasset til 49 (46 %) individer med RDA (median alder 4 år); 25 av disse individene hadde sluttet å bruke protese ved 12 års alder. En sammenligning av protesebrukere ($n = 13$) og ikke-protesebrukere ($n = 12$) viste ingen forskjell i funksjon og livskvalitet (små grupper).

Konklusjon: Funnene indikerer at voksne med RDA har god, men redusert funksjon i dagliglivet sammenliknet med den generelle befolkningen, de er tilfredse med livene sine, rapporterer god opplevd helse og føler at ting går bra enten de bruker protese eller ikke.

Summary

Purpose: Assess self-reported symptoms and functional status, with a focus on physical function and quality of life in adults with Upper Limb Reduction Defects (ULRD) and compare with the Norwegian general population. Furthermore, compare function and quality of life within the ULRD group between prosthetic users and non-prosthetic users with congenital absence of both forearm and hand.

Literature framework and method: Quantitative measures of population characteristics. A cross sectional study where adults ≥ 18 years of ULRD associated with Oslo University Hospital were compared with a control group adults ≥ 18 years drawn from the Norwegian general population in terms of function measured with KvikkDASH; the Norwegian short version of the questionnaire DASH (Dysfunction in Arm, Shoulder and Hand) (scale from 0-100 where low numbers indicate good function) and quality of life measured with the Norwegian versions of the questionnaires SWLS (Satisfaction With Life Scale) (scale from 1-7 where high numbers indicate high satisfaction with life) and EQ-5D-5L (health-related quality of life) (VAS scale from 0-100 where high numbers represent the best imaginable health). The results were analyzed using descriptive statistics and non-parametric tests (MWU and KW).

Results: The study included 107 respondents with unilateral (88%) or bilateral (12%) ULRD; congenital absence of hands and fingers ($n = 48$, 45%) and congenital absence of both forearm and hand ($n = 25$, 23%) occurred most frequently. The median age was 27 years (Q1:22, Q3:36;) and 48% were men. Furthermore, the study included 341 controls from the general population; median age was 48 years (Q1:35, Q3:61) and 49% were men. The ULRD group reported impaired function in arm, shoulder and hand (median = 13) compared to the control group (median = 2). The difference was significant with a small effect size ($r = 0.36$). There was no difference in quality of life; both groups scored high on satisfaction with life (median = 5.4) and self-perceived health (median = 80). Armprosthesis was fitted to 49 (46%) individuals with ULRD at median age 4 years; 25 of these individuals had stopped using their prosthesis at 12 years of age. A comparison of prosthetic users ($n = 13$) and non-prosthetic users ($n = 12$) showed no difference in function and quality of life (small groups).

Conclusion: The findings indicate that adults with ULRD have good, but reduced function compared with the general population, they are happy with their lives, report good health and feel that things are going well regardless of whether they wear a prosthesis.

Forord

Arbeidet denne studien startet i 2011 da jeg jobbet som koordinator for Nasjonalt kompetansesenter for dysmeli og ble gjennomført på Oslo universitetssykehus i Ortopedisk avdeling fra 2014-2017. Min arbeidsgiver har gitt meg muligheten til å fordype meg i helsefagvitenskap; teorier og metoder, gjennom å bruke deler av dataene fra «Armdysmelistudien» i gjennomføringen av mastergraden ved Universitet i Oslo.

Veileder har vært professor og fysioterapeut Inger Holm ved Oslo universitetssykehus som gjennom viktige og gode tilbakemeldinger har hjulpet meg med å begrense, nyansere og klargjøre fremstillingen. Takk!

Jeg er takknemlig for alle personer med medfødt reduksjonsdefekt i armene, kontrollpersoner og fagpersoner som velvillig har deltatt i studiens forløp. Jeg vil spesielt takke: Overlege dr.med. Trine Sand Kaastad som sa seg villig til å være studiens prosjektleder. Overlege ph.d. Kristin Østlie som var engasjert og hjelpsom da jeg la frem forskningsideen og som hadde gått opp veien med forskning på personer med ervervede amputasjoner.

Spesialergoterapeutene Bjørg Johansen og Liv Bakken som med sitt kliniske skjønn og kritiske blikk bidro til innholdet og utformingen av spørreskjemaet. Medlemmer i Dysmeliforeningen, kollegaer i Dysmeli og armamputasjonsteamene, venner og familie som kom med verdifulle innspill etter å ha vurdert og testet ut spørreskjemaet. Statistikerne Are Hugo Pripp for styrkeberegning og førsteamanuensis Valeria Vitteli for diskusjoner om statistiske analyser. Eirik Pettersen fra Data og Analyseavdelingen på Oslo universitetssykehus som bidro med pasientlistene. Sophies Minde Ortopedi AS som finansierte hovedprosjektet som denne masterstudien er en del av. Takk til alle som har heiet på meg, kommet med nyttige innspill og korrekturlesing underveis.

Takk også til min arbeidsgiver, Oslo universitetssykehus, Ortopedisk klinikk, Forskning og utviklingsavdelingen som har gjort det mulig for meg å være masterstudent på deltid ved siden av jobb.

Dette arbeidet har vært krevende på mange plan, men veldig lærerikt og nyttig.

Oslo, november 2018

Anne-Karin Vik

*«Hva som ligger bak oss og
hva som ligger foran oss
er småting sammenliknet med
hva som ligger i oss.»*

Ralph Waldo Emerson

Innholdsfortegnelse

1	Innledning.....	1
1.1	Bakgrunn	1
1.2	Formål.....	3
1.1	Problemstilling og hypoteser	3
2	Teori	4
2.1	Referanseramme	4
2.2	Begrepsavklaringer.....	6
2.2.1	Reduksjonsdefekt	6
2.2.2	Funksjon - dysfunksjon	9
2.2.3	Livskvalitet.....	11
2.2.4	Armprotese og protesebruk	12
2.2.5	Normalitet.....	13
2.3	Tidligere studier.....	13
2.3.1	Funksjon og belastningsplager hos voksne	14
2.3.2	Livskvalitet hos voksne med RDA.....	15
2.3.3	Livskvalitet hos barn med RDA.....	16
2.3.4	Armprotesebruk hos voksne med RDA	17
2.3.5	Armprotesebruk hos barn med RDA.....	19
3	Metode.....	21
3.1	Design.....	21
3.2	Personvern	22
3.2.1	Godkjenninger.....	22
3.2.2	Samtykke	22
3.3	Utvalg	23
3.3.1	Populasjonen og utvelgelse	23
3.3.2	Kontrollgruppe	24
3.3.3	Styrkeberegning	25
3.4	Datainnsamling.....	27
3.4.1	Rekruttering.....	27
3.4.2	Spørreskjema.....	28
3.4.3	Måleinstrumenter	28

3.4.4	Dataanalyser	31
4	Resultater.....	34
4.1	Utvalg	34
4.1.1	Funksjon i arm, skulder og hånd	37
4.1.2	Tilfredshet med livet.	39
4.1.3	Generell helse	40
4.2	Bruk av armprotese.....	43
4.2.1	Funksjon og livskvalitet hos brukere versus ikke-brukere av armprotese	46
5	Diskusjon.....	51
5.1	Styrker og svakheter ved studien.....	60
5.2	Etiske refleksjoner	63
5.3	Klinisk relevans	64
6	Konklusjon	67
	Litteraturliste	68
	Vedlegg	74
	Vedlegg 1 Vedtak fra REK	74
	Vedlegg 2 Godkjenning av Mastergradsprosjekt	75
	Vedlegg 3 Informasjonsskriv pasienter.....	85
	Vedlegg 4 Samtykke pasienter	87
	Vedlegg 5 Spørreskjema pasienter	88
	Vedlegg 6 Informasjonsskriv kontroller	97
	Vedlegg 7 Samtykke kontroller.....	99
	Vedlegg 8 Spørreskjema kontroller.....	100
	Vedlegg 9 Godkjennelse EuroQoL	107

1 Innledning

Denne oppgaven har som mål å bidra til å øke kunnskapsgrunnlaget i behandlingen av personer med medfødte misdannelser i armene (heretter forkortet RDA). Det gjøres gjennom å kartlegge funksjon, helse relatert livskvalitet og tilfredshet med livet hos voksne med reduksjonsdefekt i en eller begge armene. Jeg vil sammenlikne denne pasient gruppen med den norske generelle befolkningen. Videre vil jeg sammenligne protesebrukere og ikke-protesebrukere som har tversgående mangel på både underarm og hånd.

I det følgende vil jeg presentere bakgrunnen for problemstillingen. Deretter vil jeg kort avklare referanseramme og begrepene som er knyttet til problemstillingen. Jeg vil så redegjøre for hva jeg har funnet av studier på dette området. Videre vil jeg redegjøre for den overordnede metodiske tilnærmingen og gjengi konkrete arbeidsmetoder knyttet til innsamlingen og analysen av dataene. I resultatdelen vil jeg gi en oversikt over funnene mine og presentere dataene i form av figurer og tabeller. Avslutningsvis vil jeg redegjøre for svar på problemstillingen min og hvordan jeg har kommet fram til dette. Jeg vil også si noe om mulige studier som kan utdype resultatene videre basert på det jeg har funnet ut.

1.1 Bakgrunn

Da arbeidet med denne studien startet opp i 2011 var diskusjonen om fremtidige belastningsskader i dysmelifagmiljøene i Norge basert på ulike terapeutiske erfaringer, alminnelig tilgjengelig kunnskap i fysioterapifaget om hva som gir økt risiko for slitasjeforandringer/ belastningsskader meddelt på Nasjonalt dysmeliseminar om belastningsskader i 2007, evidens fra forskning på barn med reduksjonsdefekt i armene (RDA) (L. Hermansson, 2004), evidens fra forskning på personer med *erhvervede* amputasjoner (Jones & Davidson, 1999; K. Østlie, Franklin, Skjeldal, Skrondal, & Magnus, 2011b), samt informasjon fra helsepersonell som selv har medfødt mangel på hånd (Clubok, 2004).

Bekymringer for og fokus på fremtidige fysiske og psykiske belastningsplager som følge av å ha en asymmetrisk kropp og et annerledes utseende er vanlige å registrere både hos personer med medfødte mangler i ekstremitetene, pårørende og fagpersoner i feltet. Å leve med en eller flere misdannede kroppsdeler kan innebære uønsket oppmerksomhet og trolig utfordre en

persons sosiale liv og selvoppfatning (Haug, 2007; Stuve, 2007a). Daglige aktiviteter tar lenger tid og må utføres på en kompensatorisk, ofte påfallende og mere tungvint måte som f. eks ved å holde imot med stumpen, bruke munnen eller foten. Den friske armen/hånden benyttes mer og kroppen belastes asymmetrisk (L. Hermansson, 2004). Man forventer at det blir større forekomst av smerter i den friske armen (Johansen, 2015).

I Norge tilbys personer med medfødte mangler på ekstremitetene i dag livslang oppfølging i regionale tverrfaglige dysmeli- og amputasjonsteam. Barn med mangel på både underarm og hånd tilbys en passiv protese allerede fra 6 måneders alder basert på tanken om at det å vokse opp med en asymmetrisk kropp er vanskelig. Det vil føre til skjevbelastning og overanstrengelse og øke risikoen for å få belastningsplager senere i livet (Jones & Davidson, 1999). Daglig bruk av protese kan redusere risikoen for dette og gi bedre funksjon og forebygge fremtidige plager relatert til denne misdannelsen (L. Hermansson, 2004). Nyere studier på armprotesebruk indikerer at det ikke er entydig slik at bruk av protese beskytter mot overbelastning og smerter slik man klinisk kunne forvente utfra at frisk side avlastes og at kroppen blir mindre asymmetrisk (Biddiss & Chau, 2007) (K. Østlie, 2016; K. Østlie, Franklin, Skjeldal, Skrondal, & Magnus, 2011a).

Det fins sparsomt med kunnskap om funksjon, livskvalitet og protesebruk blant voksne personer med RDA. Undersøkelser som er foretatt med små og ikke så representative utvalg, eller på personer med ervervede amputasjoner kan trolig ikke generaliseres til personer med medfødt reduksjonsdefekt. Gruppen med medfødte misdannelser i armene har i motsetning til traumatisk amputerte, ingen annen referanse enn den kroppen de er født med. De har livslang erfaring med sitt handikap og bruker i utgangspunktet kroppen slik den naturlig er.

I tidlig møte med foreldrene på fødeavdelingen og senere oppfølging av barna med RDA er det ønskelig å kunne gi oppdatert, kunnskapsbasert informasjon og anbefalinger med tanke på hvordan det går med barna når de blir voksne. Bedre kunnskap om funksjon, livskvalitet og protesebruk i RDA-gruppen vil kunne påvirke de råd som gis. Tilpasning av proteser er kostbart og ressurskrevende. Dersom protese tilpasses, men ikke brukes, eller oppleves som unyttig og upraktisk, så er det lite hensiktsmessig bruk av samfunnets midler. På den annen side, dersom det viser seg at det er en klar nytteeffekt av å bruke protese, så vil det være viktig ny kunnskap som kan ha betydning for rutineene for å tilby protese og opptrening i bruken av et slikt hjelpemiddel. Kostbare behandlingstiltak som er nødvendige og hensiktsmessige vil kunne settes i verk mer målrettet og systematisk.

1.2 Formål

Denne studiens formål er å bidra til et økt kunnskapsgrunnlag for behandling av personer med RDA gjennom å kartlegge gruppen og undersøke om det er forskjell i funksjon og livskvalitet sammenliknet med personer fra den generelle befolkningen i Norge. Videre vil det undersøkes om det er forskjell i funksjon og livskvalitet mellom de som bruker protese og de som ikke bruker protese.

1.1 Problemstilling og hypoteser

Er det forskjell i funksjon og livskvalitet hos personer med RDA og den generelle befolkningen?

Er det forskjell i funksjon og livskvalitet i RDA- gruppen mellom protesebrukere og ikke protesebrukere?

Hypoteser

H0: Det er ingen forskjell i funksjon og livskvalitet hos personer med RDA og den generelle befolkningen.

Halt: Det er forskjell i funksjon og livskvalitet hos personer med RDA og den generelle befolkningen.

H01: Det er ingen forskjell i funksjon og livskvalitet mellom protesebrukere og personer som ikke bruker protese i RDA-gruppen.

Halt1: Det er forskjell i funksjon og livskvalitet mellom protesebrukere og ikke protesebrukere i RDA-gruppen.

2 Teori

2.1 Referanseramme

Det overordnede målet i helsefagene er å lindre lidelse og fremme helse (Nortvedt & Grimen, 2004, s. 15). Det karakteristiske er at behandling og omsorg må være fundert på dokumentert kunnskap, individuelt skjønn og empati det vil si forståelse av et annet menneskes subjektive erfaring (Nortvedt & Grimen, 2004, s. 15).

Verdens helseorganisasjon (World Health Organization/WHO) publiserte i 1980 det første internasjonale systemet for å klassifisere funksjonshemming og funksjonshemmede «International Classification of Impairments, Disabilities and Handicaps» (ICIDH) (L. Grue, 2016, s. 78). Dette klassifiseringssystemet problematiserer forholdet mellom det biomedisinske avviket (impairments) fra en norm, på grunn av medfødt mangel, sykdom eller skade, og de konsekvensene dette avviket har for funksjonen (disability) (ibid, s. 78). Kategoriene som utgjør «impairment» delen er basert på sykdomsklassifikasjonene i ICD-kodeverket (International Classification of Diseases) (ibid, s. 79). I dette kodeverket blir grunnlidelsen (impairment) (i vårt tilfelle medfødt reduksjonsdefekt) et utgangspunkt for å forstå at personen har unormale eller avvikende kroppslige funksjoner.

Dette betegnes som den medisinske modellen av funksjonshemming (L. Grue, 2016, s. 79). Innenfor denne forståelsen utarbeides det tiltak for å gjøre det lettere for den som er funksjonshemmet (ibid, s. 79). Dette kan for pasientgruppen i denne studien dreie seg om kirurgi for å forbedre grepet, habilitering/rehabilitering eller tilpassing av hjelpemidler som proteser og/eller spesialgrep. Den medisinske forståelsen er sentral når det gjelder å begrunne søknader med diagnoser og få innvilget av ytelser fra Nav (L. Grue, 2016, s. 80). Denne forståelsen av funksjonshemming kan således få betydning for muligheter til utdanning, arbeid og sosial deltagelse (ibid, s. 80).

Den medisinske tilnærmingen som ICDH representerer tar i liten grad hensyn til hvordan de ulike forholdene som omgir en person med en sykdom/lidelse kan påvirke de funksjonsmessige konsekvensene av grunnlidelsen (Grue, 2016, s. 80). WHO har derfor også utviklet en biopsykososial tilnærming til funksjonshemming med en forsøksvis samlet forståelse av ulike dimensjoner som er relatert til sykdom og helse på et biologisk og et sosialt

vis (ibid, s. 80). Dette klassifiseringssystemet kalles på engelsk “International Classification of Function, Disability and Health” (ICF).

I det medisinske perspektivet er det mest fokus på pathogenesen – som vektlegger årsaken til det syke og en enten syk eller frisk diktomi. Fokus på symptomer er tyngende og innebærer fokus på svikt og begrensninger (deVibe, 2014). Terapi og behandling medfører at andre personer involveres og behandlingen styres av eksperter som vet best og dette fokuset utløser indirekte spørsmålet «Hva er i veien med deg?» (deVibe, 2014).

Dette i motsetning til salutogenesen – som vektlegger det som fremmer god helse og som gir den enkelte økt mestring og velvære (Walseth & Malterud, 2004). I det salutogene perspektivet er helsetilstanden på et kontinuum fra uhelse til helse. Salutogenesen skapes gjennom gjensidig endring av fokus, roller, relasjoner og identitet (deVibe, 2014). Salutogenesen har fokus på personens ressurser og bidrar til å løfte opp. Det er en «jeg-styrt prosess» og handler om hele personen; mine talenter, muligheter, motivasjon, håp, drømmer om vennskap, relasjoner, ansvar og likeverd (ibid). Prosessen styres av spørsmålet «Hva er viktig for deg?» (deVibe, 2014).

Helse og sykdom er således ulike prosesser; hva er i veien med deg versus hva er viktig for deg. Helse skapes, sett i lys av salutogenesen, av helsefremmende holdninger og handlinger og ikke ved å forebygge og behandle sykdom. Det å forholde seg til en diagnose og informere om den er i stor grad et spørsmål om holdninger og verdier. Helsepersonell må være bevisst sine egne holdninger og verdier og følelser av å komme til kort.

Helsefagene er yrker der kunnskap og teknologi brukes til beste for behandlingen av pasienten, men i all handling ligger det taus kunnskap og mye som tas for gitt og kanskje aldri tenkes over (Nortvedt & Grimen, 2004, s. 15). Dette som vi tar for gitt kan følge av andre ting vi har lært og kommer til syne i forhold til hva vi mener er viktig, hva vi stoler på og hva vi ikke stoler på, hva et menneske er, hva kunnskap er, hva sykdom og helse er, hva er normalt og hva er ikke normalt (ibid, s. 15). Det vi tar for gitt i handling og tenkemåte former oss som menneske og fagperson og vil være med på å avgjøre hva vi er åpne eller lukket for. Det som tas for gitt kan vise seg problematisk ved nærmere øyesyn. Det som tas for gitt kan stenge for alternative måter å se ting på (Nortvedt & Grimen, 2004, s. 15).

Bevissthet på egne verdier, helsefremmende holdninger og både det kulturelle og det psykologiske aspektet er derfor viktig å ta hensyn til i arbeidet med personer med medfødte misdannelser. Måten nybakte foreldre får et budskap på kan være avgjørende for måten de tenker om og forholder seg til sitt barn på og for fremtiden til barnet (Kallevik, 2007, s. 77) og hvordan barnet tenker om seg selv. Makten til å definere hva som er så annerledes at det skaper reaksjoner og påvirker sosiale møter, ligger både hos det enkelte individ og hos omverden (Stuve, 2007b, s. 105).

Når vi møter et menneske med et annerledes utseende og deres pårørende er det derfor viktig at vi fokuserer på personen som en helhet, komplimenterer de flotte tingene ved det nyfødte barnet, påpeker mulighetene fremfor det som begrenser (Kallevik, 2007, s.74).

Kartlegging av den enkeltes ressurser, inkludert kunnskap om pasientens og familiens egne måter å løse utfordringer på, deres sykdomsoppfatning og sykdomsatferd er avgjørende for å forstå hva som er viktig for den enkelte (Vaglum & Finset, 2007). God problemløsning fra behandlerens side forutsetter også gode biomedisinske kunnskaper og kategorisering slik det gjøres i ICD 10 kodereglene kan gi mulighet for å nyansere behandlingstilbudet.

2.2 Begrepsavklaringer

2.2.1 Reduksjonsdefekt

Reduksjonsdefekt er en sjelden og medfødt mangel (utviklingsfeil) i en eller flere lemmer (arm/ben). Personer med reduksjonsdeformiteter utgjør en heterogen gruppe. Hele eller deler av armen og/eller benet kan mangle, ofte dreier det seg i praksis om en avgrenset skjelettdel.

Reduksjonsdefekt forekommer oftest i armene. Det er et stort spekter av forandringer og slike mangler kan være del av et mer omfattende syndrom og kan da være arvelig, men er i de aller fleste tilfeller en isolert forandring hos et ellers friskt barn (Bye, 2007).

I Norge har man i mange år upresist omtalt tilstanden reduksjonsdefekt bare som dysmeli, men faktum er at tilstanden er en av flere som hører inn under samlebegrepet dysmeli (av gresk dys=feil, melos= lem/lemmer) som brukes om alle medfødte misdannelser i armer og

ben. På engelsk benyttes “congenital reduction defect/ deformity, congenital limb deficiency”, “congenital limb differences” og “limb deficiency present at birth”.

For å beskrive tilstanden deles reduksjonsdefektene inn i forhold til ICD-10 kodeverket som er den internasjonale statistiske klassifikasjonen av sykdommer og beslektede helseproblemer. Kodeverket er et normgivende redskap for systematisk klassifisering og registrering av sykdommer og beslektede helseproblemer (Verdens helseorganisasjon, 2018). Kategoriseringen (kodereglene) for reduksjonsdefekter i overekstremitet er hitsatt og skissert nedenfor:

Q71 Reduksjonsdefekter i overekstremitet

Q71.0 Medfødt fullstendig mangel på overekstremitet(er)

Q71.1 Medfødt mangel på overarm og underarm med hånd til stede

Q71.2 Medfødt mangel på både underarm og hånd

Q71.3 Medfødt mangel på hånd og fingre

Q71.4 Longitudinal reduksjonsdefekt i radius

 Klumphånd (medfødt)

 Radial klumphånd

Q71.5 Longitudinal reduksjonsdefekt i ulna

Q71.6 Spaltehånd

Q71.8 Andre spesifiserte reduksjonsdefekter i overekstremitet(er)

 Medfødt forkorting av overekstremitet

Q71.9 Uspesifisert reduksjonsdefekt i overekstremitet

Et klassifikasjonssystem fra den Internasjonale organisasjonen for standardisering (ISO), benyttes også for å beskrive tilstanden. Den deler reduksjonsdefektene i to hovedgrupper:

Transverselle reduksjonsdefekter (tversgående mangler/medfødt amputasjon). Alt nedenfor et nivå på armen eller benet mangler (Helsenorge.no, 2018).

Longitudinelle reduksjonsdefekter (langsgående mangler). En eller flere knokler i arm eller ben mangler helt eller delvis. Noen ganger er knoklene mindre utviklet enn normalt. I andre tilfeller kan deler midt på en arm eller et ben mangle. Langsgående reduksjonsdefekter kan gi ulik grad og kombinasjon av mangler, ofte på både arm(ene) og ben(a). (Helsenorge.no, 2018)

De fleste (64, 9 %) har mangel i en arm og vanligst forekommende tilstander er tversgående reduksjonsdefekter i en arm (Q71.0, Q71.2 og Q71.3) (Medisinsk Fødselsregister (MFR), 2018). Noen har reduksjonsdefekter kun på ben (20, 6 %) og et fåtall har reduksjonsdefekter på både arm(er) og ben(a) (8, 5 %) (Klungesøy, upubliserte data).

Tilstanden oppstår tidlig i fosterlivet, i uke fem – ni, ofte før mor vet at hun er gravid. Reduksjonsdefekt i arm eller ben kan skyldes mekaniske/vaskulære årsaker (1/3), genetiske årsaker (1/3), teratogene årsaker (4 %), mens ca. 1/3 av tilfellene har ukjent årsak (Rise, Songstad, Rosendahl, Rustad, & Hulleberg, 2017).

Thalidomid tragedien for over 60 år siden forårsaket bilaterale reduksjonsdeformiteter hos 10 000 barn på verdensbasis som en følge av at mødre brukte det beroligende og kvalmedepende legemiddelet Thalidomid i svangerskapet. I Norge er det 13 kjente tilfeller. I følge Ephraim og kollegaer (2003) var det en rapport utarbeidet av Lenz and Knapp i 1962 som dokumenterte de teratogene effektene av thalidomid på fosteret og som førte til etableringen av nasjonale fødselsregistre verden over (Patti L. Ephraim, Dillingham, Sector, Pezzin, & MacKenzie, 2003). Registrene skulle tjene som et tidlig varslingsystem for å oppdage medfødte defekter som kan forebygges (Patti L. Ephraim et al., 2003). Medisinsk fødselsregister i Bergen (MFR) ble etablert i 1967 i kjølvannet av thalidomid katastrofen, og var det første i sitt slag i verden (Irgens, 2000).

Forekomsten av reduksjonsdefekter (arm og ben) i Medisinsk fødselsregister i Bergen fra 1970-2016 er 4,4 per 10 000 fødte og det vil trolig si 25-30 tilfeller hvert år (Klungesøy, upubliserte data). Totalt er det registrert 1206 tilfeller med reduksjonsdefekt siden registreringen startet i 1970 og frem til 2016. Registeret er basert på lovpålagt innmelding av alle svangerskap som avsluttes fra og med 16 uker (12 uker fra 2001), og inkluderer etter 1999 også melding fra nyfødte medisinske avdelinger for alle barn som overflyttes en slik

avdeling etter fødsel (ibid). Fra 1999 har MFR også mottatt melding om svangerskapsavbrudd etter uke 12 der avbruddet skyldes sykdom/misdannelse hos fosteret (ibid). Fra 1999 til 2016 er det registrert 500 tilfeller (4,6/10 000) der 129 av tilfellene (25,8 %) ble registrert som svangerskapsavbrudd (Klungesøyr, upubliserte data).

I utenlandske studier er angitt forekomst høyere (5-8 per 10 000) (McGuirk, Westgate, & Holmes, 2001) (Gold, Westgate, & Holmes, 2011) (Evans, Vitez, & Czeizel, 1994). Angitt forekomst er enda høyere i litteratur der andre medfødte misdannelser i ekstremitetene (sammenvoksinger eller at det er for mange av noe; f. eks fingre eller tær) også er inkludert (Ekblom, Laurell, & Arner, 2010), (Vasluian et al., 2013), ifølge *Anbefalinger for utredning av nyfødte med reduksjonsdeformiteter* (Rise et al., 2017).

Personer med reduksjonsdefekt i overekstremitetene er som sagt forskjellige. Hos mange med RDA er den fysiske funksjonen tilnærmet lik personer uten reduksjonsdefekter. Hos andre er funksjonen mer påvirket, avhengig av hvordan skjelettet, musklene, blodårene og nervene er utviklet i armen (Helsenorge.no, 2018).

Betinget av nivå og type mangel tilbys mange pasienter protese eller de blir behandlet med gjentatte inngrep og langvarig ergoterapibehandling. McLaughlin og kollegaer anfører at barn med RDA tilpasser sine ferdigheter til dagliglivet og oppnår funksjonelle milepæler, med eller uten armprotese (McLaughlin, Lisenby, Sharma, & Modrcin, 2013). I ca. 10 % av tilfellene kan kirurgiske inngrep øke funksjonen (McLaughlin et al., 2013).

2.2.2 Funksjon - dysfunksjon

Funksjon og dysfunksjon er viktige begreper i studien. Funksjon som begrep kan være vanskelig å definere. I denne studien ser jeg funksjon som et samspill mellom person, helsetilstanden, aktivitet og omgivelser; jeg ser på hvordan (dys)funksjon i arm, skulder og hånd påvirker utøvelse av aktivitet både fysisk, sosialt og psykisk. Funksjonen påvirkes både av individuelle faktorer og av omgivelsene. Dette er i tråd med WHO sin internasjonale klassifikasjon av funksjon (International Classification of Functioning, Disability and Health/ICF) (World Health Organization, 2018). Overordnet bruker ICF funksjon som begrep når de omtaler alle kroppsfunksjoner, aktiviteter og deltagelse. Videre defineres aktivitet som utførelse av en aktivitet eller handling og deltagelse som involveringen av en livssituasjon (Høyem, 2008).

Det egenrapporterte spørreskjemaet KvikkDASH som benyttes i studien er laget for å måle fysisk funksjon og symptomer hos personer med en eller flere tilstander i overekstremitetene (Beaton, Wright, & Katz, 2005). Elementene er ikke knyttet til den berørte armen fordi det er ønskelig å klarlegge personens evne til å gjøre aktiviteter uavhengig av hvilken arm, skulder eller hånd personen bruker. Hensikten er å finne ut hvor store problemer en person har når vedkommende gjør en aktivitet, uavhengig av hvordan det gjøres (Beaton et al., 2005).

Begrepet dysfunksjon kan forstås på mange ulike måter utfra hvilket perspektiv man har; et medisinsk, sosialt eller relasjonelt perspektiv. Perspektivene avhenger av konteksten og oppfatningen og bruken av begrepet har variert både i tidens løp og i ulike samfunn. I dag er det vanlig å dele forståelsen av funksjonshemming opp i tre ulike modeller; en biomedisinsk modell, en sosial modell og en relasjonell (fenomenologisk) modell.

Innen den biomedisinske modellen er det *diagnosen og sykdommen, skaden eller tilstanden* som individet opplever som anses som selve årsaken til funksjonshemmingen. Dette er et naturvitenskapelig tanke sett der helse og sykdom forklares ut fra anatomi og fysiologi og forstås som feil i kroppens biologiske «maskineri». I det biomedisinske helsebegrepet er funksjon og dysfunksjon forklart ut fra personens biologi og fysiologi, uavhengig av tid, sted og kulturelle verdier. Dysfunksjon er et individuelt problem forårsaket av sykdom og skade, der helsearbeiderne er ekspertene som har ansvar for å diagnostisere funksjonssvikt, vurdere å iverksette nødvendig, hensiktsmessig behandling (Dagfinrud, 2016).

Den sosiale modellen fokuserer på *samfunnsmessige* og kulturelle forhold og belyser hvilke forhold (fysiske eller sosiale) samfunnet skaper, eller ikke skaper, som gjør at mennesker faller utenfor den konstruerte normalen. I følge den sosiale modellen har samfunnet konstruert en normal mennesketype og de som fysisk eller psykisk faller utenfor denne normalen er dermed unormale (L. Grue, 2004). Dysfunksjon sees på som et resultat av diskriminering og helse og funksjon fremmes gjennom å endre sosiale, økonomiske og miljømessige forhold.

Den tredje modellen for å forstå funksjonshemming er den relasjonelle modellen; en videreutvikling av GAP modellen (Lid, 2014) som ser på *gapet (misforholdet) mellom individets forutsetninger og samfunnets krav til deltagelse* (Lie, 1996). I hovedsak dreier GAP modellen seg om praktiske problemer som oppstår fordi det ikke er samsvar mellom personens funksjonsevne og kravene miljøet stiller til funksjon (Lie, 1996). Disse barrierene i omgivelsene som hindrer en persons deltagelse kan reduseres gjennom tiltak som styrker

personens forutsetninger, for eksempel rehabilitering, hjelpemidler (f. eks tilbud om proteser) og økonomiske støtteordninger. Kravene kan også reduseres gjennom tiltak i omgivelsene, for eksempel universell utforming av bygninger, offentlig transport og informasjonssystemer (Lid, 2014)). Den relasjonelle modellen skiller seg fra det biomedisinske perspektivet og det sosiale perspektivet ved at hovedfokuset er på selve *samspeillet, interaksjonen mellom menneske og omgivelser*. Hensikten er å oppnå likeverdige muligheter for samfunnsdeltakelse for alle mennesker innenfor alle samfunnsarenaer (Lid, 2014). Den relasjonelle modellen ligger til grunn for FN-konvensjon om Rettighetene til personer med nedsatt funksjonsevne (Skarstad, 2018), som ble ratifisert av Norge i 2013 og Diskriminerings- og tilgjengelighetsloven fra 2009 (Lid, 2014).

Fokuset i studien er altså på *om det er vanskelig og hvor vanskelig det i så fall er* å utføre aktiviteter som krever bruk av arm, skulder og hånd; f.eks. i mattilberedning, husarbeid, bæring, personlig pleie, fritidsaktiviteter og med eller uten protese, og hvordan de eventuelle problemene og symptomene hemmer eller begrenser det sosiale livet, daglige gjøremål og egen psyke. Det passer inn i en relasjonell modell der hensikten er å identifisere og minske gapet mellom individets forutsetninger og samfunnets krav.

2.2.3 Livskvalitet

Det finnes ingen enhetlig definisjon av hva livskvalitet er, fordi ulike fagdisipliner har ulike syn på fenomenet (Anderson & Burckhardt, 1999).

Det er i teorien fire ulike perspektiv å se livskvalitet ut ifra. Innen det medisinske perspektivet er fokuset på hvordan helsetilstand, sykdom og funksjonshemming vil virke inn på menneskers livskvalitet og tilfredshet med livet, såkalt helsereelatert livskvalitet. Innenfor et sosiologisk og økonomisk perspektiv er det levekårenes betydning for et godt liv som er i fokus (Næss, 1986). I et psykologisk perspektiv fokuseres det på menneskers opplevelse av hva som er et godt liv.

Det som er felles for de ulike tilnærmingene er at livskvalitet er et subjektivt fenomen, at livskvalitet påvirkes av en rekke forhold og områder som de nevnte perspektivene synliggjør og at livskvalitet er relativt, noe som innebærer at tilfredshet med livet avhenger av den enkeltes behov og forventninger innen ulike områder og hvorvidt disse kan innfris (Helseth, 2001).

I denne studien har jeg valgt å se på livskvalitet både fra et psykologisk ståsted: tilfredshet med livet-, samt et medisinsk ståsted: helserelatert livskvalitet.

2.2.4 Armprotese og protesebruk

En armprotese er et ortopedisk hjelpemiddel som skal kompensere for manglende armlengde og/eller grepsfunksjon (K. Østlie, Kjeldstadli, Jacobsen, Krokan, & Lyrstad, 2017). Slike proteser tilpasses for å normalisere utseende eller for å gi bedre funksjon i form av støtte, grep avlastning eller begge deler. Det fins tre hovedtyper armproteser (ibid):

- Elektrisk / myoelektrisk protese; styres av elektroder eller ulike brytere. Aktiv grepsfunksjon med hånd eller krok.
- Kroppsstyrt / mekanisk / konvensjonell protese; har seletøy og wire. Aktiv grepsfunksjon med hånd eller krok.
- Kosmetisk protese; er uten aktiv grepsfunksjon. Standard eller individuell kosmetisk hånd. En variant av kosmetisk protese er tilvenningsprotese / «krabbeprotese» som lages for de minste barna.
- Hybrid protese, kombinerer bruken av både elektriske- og konvensjonelle deler i en og samme protese. Dette kan for eksempel være en overarmsprotese med en mekanisk albue og en myoelektrisk hånd.

Hver protesetype har sine fordeler og ulemper når det gjelder faktorer som for eksempel grepsstyrke, hastighet, vekt og kosmetikk (K. Østlie et al., 2017). Valg av protesetype(r) gjøres derfor etter individuell vurdering i et tverrfaglig dysmeli- og armamputasjonsteam, basert på pasientens forutsetninger, behov og preferanser (ibid). Proteser tilpasses individuelt. Utgiftene til armproteser dekkes av NAV (akronym for Ny arbeids- og velferdsforvaltning) (Wikipedia.no, 2018).

I denne studien defineres det som protesebruk hvis *respondenten selv* anser seg som protesebruker enten protesen brukes daglig (0-4 timer eller mer), ukentlig (1-6 ganger), månedlig (1-4 ganger) eller sjeldnere (mindre enn en gang i måneden).

2.2.5 Normalitet

Normalitet er ingen fastsatt størrelse eller tidløs norm, men innebærer en kategorisering og rangering (L. Grue, 2016). Det finnes i alle samfunn ett sett med lover, regler og normer (forventninger) for hva som er akseptabelt, og hva som er ønskelig og forventet både når det gjelder utseende, oppførsel og adferd (L. Grue, 2016, s. 9). Hvor grensene går for hva som er normalt, og hva som er unormalt og på hvilken måte avvik fra det normale behandles, og av hvem har variert gjennom historien og i ulike kulturer (L. Grue, 2016, s. 10).

Det kan skilles mellom tre betydninger av normalitet; medisinsk normalitet, statistisk normalitet og kulturell eller moralsk normalitet (Helsekompetanse.no, 2018).

Innen medisinsk tenkning er uttrykket for normalitet det friske og oppfatningen av hvordan kroppen skal se ut (Helsekompetanse.no, 2018).

Den statistiske normaliteten referer til det typiske eller det gjennomsnittlige som ideal (L. Grue, 2016, s. 15). Normalfordelingskurven (Gauss-kurven) er vanlig brukt for å vise fordelingen av bestemte egenskaper og en rekke observasjoners avvik fra gjennomsnittet (ibid). Innenfor normalfordelingen vil det normale være det som befinner seg midt på kurven, mens det observerte fenomenet er mer avvikende og unormalt jo lenger man beveger seg fra midten og ut mot sidene (Helsekompetanse.no, 2018). Statistikken brukes for å gi en oversikt over fenomenene med tanke på å oppnå forståelse av forskjeller eller sammenhenger og få bedre grunnlag for å iverksette tiltak (Grue, 2016, s. 12).

Den kulturelle definisjonen av normalitet bestemmes og defineres i forhold til verdier og gjeldende normer i samfunnet (Helsekompetanse.no).

2.3 Tidligere studier

Selv om antall studier relatert til RDA er økende er det fremdeles få publiserte studier av langtidseffekter av RDA på funksjon og livskvalitet.

Søk som er gjort i Pub Med, CINHALL, PsycINFO og Embase viser at det er generelt god tilgang på litteratur om barn med dysmeli, men få studier som inkluderer voksne. Selv om antall studier relatert til RDA er økende er det fremdeles få publiserte studier av

langtidskonsekvenser av RDA på funksjon og livskvalitet. Livskvalitetsstudiene tar i stor grad for seg barn.

2.3.1 Funksjon og belastningsplager hos voksne

Muskelskjellettplager er vanlig forekommende hos personer med ervervet amputasjon, men også hos personer med medfødte misdannelser på armene (Datta, Seelvarajah, & Davey, 2004; P. L. Ephraim, Wegener, MacKenzie, Dillingham, & Pezzin, 2005; Hanley et al., 2009; Johansen, Østlie, Andersen, & Rand-Hendriksen, 2015; Jones & Davidson, 1999; K. Østlie et al., 2011a).

I studien «*Save that arm*» som inkluderer personer med ensidig ervervet armamputasjon fant Jones og Davidson (1999) at halvparten hadde problemer av varierende grad i den gjenværende armen. Jo mer proksimal amputasjon, jo større risiko for belastningslidelser i den gjenværende armen, men verken protesebruk eller at man ikke var i arbeid viste seg å være beskyttende. Forskerne Jones og Davidson poengterte viktigheten av å informere pasientene om problemene de står overfor og anså tilrettelegging av aktiviteter i arbeid og fritid, og omskolering som viktig, særlig ved tungt manuelt arbeid.

Østlie fant i 2011 at *ervervet* amputasjon av en overekstremitet øker risikoen for selvrapporert smerte i nakken, øvre del av ryggen, skuldrene og den gjenværende armen (K. Østlie et al., 2011a). Dette kan forklares med at denne pasientgruppen har hatt en erfaring med å ha en arm og kroppen må tilpasse seg tapet, noe er forskjellig fra de personene som aldri har erfart noe annet enn den kroppen de er født med.

Resultatene fra disse og andre liknende studier kan ikke uten videre generaliseres til personer med medfødte reduksjonsdefekter, men nyere studier på personer med RDA understøtter antagelsen om at også gruppen med medfødte defekter på armene står i fare for å utvikle funksjonsproblemer i den uaffiserte armen (Burger & Vidmar, 2016; Johansen et al., 2015; S. G. Postema et al., 2016).

I en kvalitativ studie om mestring av funksjonstap og smerter hos åtte kvinner med «en-arms dysmeli» rekruttert fra pasientregisteret til TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser fant Johansen og kollegaer (2014) at voksne kvinner gradvis skjønnte at de måtte gjøre endringer i livet og lære nye mestringsstrategier, noe som for mange var en vanskelig prosess (Johansen,

Andresen, & Thorsen, 2014). Mange erkjente at det var viktig å holde kroppen i form med trening og at de måtte senke ambisjonsnivået med hensyn til innsats på arbeid og i dagliglivet (Johansen et al., 2014).

Forskere anbefaler at helsepersonell informerer om fare for belastningsskader økende med alder (S. G. Postema et al., 2016), og at det foretas jevnlig individuell oppfølging for å forbygge eller i det minste utsette problemer (Burger & Vidmar, 2016).

2.3.2 Livskvalitet hos voksne med RDA

Det er funnet sparsomt med kunnskap om livskvalitet hos voksne med reduksjonsdefekt i armene sammenliknet med den generelle befolkningen og hvordan livskvaliteten eventuelt påvirkes av protesebruk.

I en norsk tverrsnittstudie som inkluderte 97 voksne med medfødte misdannelser på arm og ben, men hovedsakelig transverselle reduksjonsdefekter i en arm, (median alder 39 år, der 77 % var kvinner) trukket fra pasientregisteret på TRS, fant Johansen og kollegaer (2015) at personer med medfødte misdannelser lever vanlige aktive liv og erfarer vanlige livshendelser; de tar utdanning, forsørger seg selv, gifter seg, får barn. Mestringsstrategier gjør at dagliglivet fungerer fint, men det rapporteres mer kronisk smerte sammenlignet med den generelle befolkningen (hvor en av fire rapporter kronisk smerte og kvinner mer enn menn (Jensen, 2009) og at de pensjonerer seg tidlig (Johansen et al., 2015)

De samme forskerne rapporterte i 2016 helserelatert livskvalitet hos 77 personer med unilateral reduksjonsdefekt trukket fra pasientregisteret på TRS (median alder 42 år, 71 % kvinner.) Forskerne fant at voksne med RDA har nedsatt helserelatert livskvalitet (HRQoL) på de fleste skalaer på helsespørreskjemaet SF36 (The 36-Item Short Form Health Survey) og mest på det fysiske området (Johansen, Østlie, Andersen, & Rand-Hendriksen, 2016). Ansettelsesstatus, komorbiditet (nærvær av en eller flere sykdommer/ vansker) sykdom) og kronisk smerte hadde negativ innflytelse på helserelatert livskvalitet. Dette er den eneste studien jeg har funnet som har brukt et standardisert kartleggingsinstrument på helserelatert livskvalitet hos voksne.

I en svensk tverrsnittstudiestudie der forskerne studerte livssituasjonen til 117 voksne med medfødte reduksjonsdeformiteter på arm og eller ben, 92 % av deltagerne hadde unilateral

RDA, fant Sjøberg og kollegaer (2014) at majoriteten rapporterte god eller veldig god helse og at mange deltagere var optimistiske med hensyn til fremtiden. (Sjøberg, Nilsagard, & Fredriksson, 2014). Forskerne fant at personer med RDA levde tilfredse og aktive liv med hensyn til utdanning, arbeid og fritidsaktiviteter og at de ikke skilte seg ut fra den svenske befolkningen i så måte.

Krantz viste i en kvalitativ studie at kvinner med RDA i alderen 20 til 30 år tilegnet seg strategier for å håndtere stigma (Krantz, Bolin, & Persson, 2008). Stigma kan defineres som en prosess der noen individer plasserer andre individer i en bestemt kategori f.eks. ved å diskreditere eksisterende, synlige kjennetegn og egenskaper i situasjoner som oppstår i hverdagen (Wikipedia, 2018). Formålet med disse stigma-håndteringsstrategiene var å kontrollere hvor mye kvinnene skulle tilkjenne at de avvek fra «normalen» (det som flertallet anser som det vanlige). Stigma-håndteringsstrategiene ble midler for å minimere mikro-stress og maksimere det personlige velværet og tok sikte på å forsinke eller fremme eksponeringen av RDA. Dersom eksponeringen ble forsinket, gled personen inn i mengden. Etter hvert som eksponeringen skjedde kunne den relative betydningen av RDA i samhandlingen med andre bli redusert, og dermed forsterket eller forandret andres holdninger seg (Krantz et al., 2008).

2.3.3 Livskvalitet hos barn med RDA

Det finnes derimot flere studier om livskvalitet hos barn med reduksjonsdefekt i armene. Jeg velger å referere til disse da reduksjonsdefekt er en medfødt misdannelse og hvordan disse barna hadde det i barndommen vil sannsynligvis påvirke og gi retning for deres voksne liv.

Ylimäinen og kollegaer konkluderte med at gruppen barn og ungdom med ulike former for reduksjonsdefekter hadde bedre helselatert livskvalitet sammenlignet med europeiske barn med andre kroniske helsetilstander, men det var undergrupper som hadde en signifikant lavere skår på livskvalitet enn sine jevnaldrende friske (Ylimäinen, Nachemson, Sommerstein, Stocksélius, & Hermansson, 2010). Uønsket oppmerksomhet og opplevd fysisk utseende var mer assosiert med livskvalitet enn lokalisering av og type reduksjonsdeformitet, som bare var assosiert med livskvalitet for jenter.

Hermansson fant i en studie om psykososial tilpasning hos svenske barn med RDA og en myoelektrisk protesehånd at barn med RDA var like bra tilpasset som sine friske jevnaldrende

når det gjaldt psykososial tilpasning og livskvalitet. (L. Hermansson, Eliasson, & Engström, 2005)

Annen forskning som inkluderer barn med RDA viser at oppfatning om fysisk utseende (J. Varni, Setoguchi, Rappaport, & Talbot, 1991), (J. W. Varni et al., 1996); (Breakey, 1997b), uventet oppmerksomhet og praktiske problemer (Pruitt, Varni, Seid, & Setoguchi, 1998; J. Varni & Setoguchi, 1991) ser ut til å påvirke velværet deres.

Hermansson stadfester at fra tidlig barndom er barn med RDA vant til oppmerksomhet på sitt annerledes utseende og til å sammenlikne seg og bli sammenliknet med andre uten misdannelser (L. Hermansson et al., 2005). Selv om de blir vant til blikk og spørsmål, er det en pågående stressfaktor som de sannsynligvis prøver å unngå, formodentlig ved å holde seg mer for seg selv, skjule armen (L. Hermansson et al., 2005). Hermansson og kollegaer fant at unnvikelse adferd var signifikant høyere hos alle barn med RDA og jenter med RDA hadde lavere sosial interaksjonskompetanse sammenliknet med data fra svenske normative utvalg basert på svar om sosial kompetanse og emosjonelle/atferdsmessige problemer (Larsson & Frisk, 1999). Videre fant de at eldre barn hadde lavere sosial interaksjonskompetanse enn yngre på enkelte aktivitetsskalaer. Dette var overraskende og i kontrast til de normative dataene der det var de eldste som var mest kompetente (L. Hermansson et al., 2005). Disse funnene indikerer at misdannelsen kan være assosiert med sosial stigmatisering (L. Hermansson et al., 2005) og dermed føre til lavere livskvalitet.

Stigmatisering kan ifølge den canadiske samfunnsviteren og forfatteren Erving Goffman (2009) defineres som «*en diskrediterende egenskap som diskvalifiserer personer fra full sosial aksept*» (Wikipedia, 2018). Den «*diskrediterende egenskapen*» er i vårt tilfelle misdannelsen RDA. Goffman sier også at fenomenet er «*en prosess hvor andres reaksjoner ødelegger en normal identitet*» (Wikipedia, 2018)

2.3.4 Armprotesebruk hos voksne med RDA

Belastningsplager og protesebruk er utfordringer som er belyst av fagpersoner som har dominert den faglige diskursen i Norden de siste 40 årene (L. Hermansson, 2004; Sörbye, 1980). I denne studien ser vi på bruken av protese fordi det kan påvirke livskvaliteten på ulike måter.

Sörbye hevdet at protesebruk var dårligere integrert og akseptert av de fleste voksne enn hva som var tilfellet med barn (Sörbye, 1980) og mente derfor det var gunstig å tilpasse en myoelektrisk protese meget tidlig gitt at visse hensyn ble tatt: stumpens utforming må være egnet og tilpasningen må utføres av et dyktig tverrfaglig team (ibid). Opplæringen må følges opp i nært samarbeid med foreldrene, som bør være grundig og tilstrekkelig informert (ibid). Det må finnes muligheter for protesejusteringer og hurtige reparasjoner og, samt at psykologiske faktorer må vurderes nøye (ibid). Under disse forholdene kan en meget tidlig myoelektrisk protesebruk være av stor nytte for pasienten (Sörbye, 1980).

Til tross for at fagfolk i tverrfaglige team erfarer at barn som er født med en misdannelse nedenfor albuen klarer seg svært godt med kroppen slik den er uten å bruke protese og at voksne ofte foretrekker å bruke protese kun i spesielle situasjoner, mener de det er viktig å prøve ut en armprotese. Dette fordi asymmetri kan føre til smerte i nakke og/eller skulderregionen og i mange tilfeller kan et funksjonelt grep være verdifullt (Stockselius, 2000).

I nordiske fagmiljøer hevdes det at daglig bruk av håndprotese kan forebygge belastningsplager i større grad enn om man ikke bruker protese og at protesebruk kan stimulere til mer symmetrisk og hensiktsmessig bruk av kroppen som beskytter mot smerter og skjevutvikling (L. Hermansson, 2004), men dette synes ikke tilstrekkelig dokumentert.

Burger og Vidmar studerte i 2016 sammenhenger blant annet mellom omfanget av overbruksproblemer og protesebruk (hyppighet, protesetype, aktiviteter) hos personer med unilateral mangel på overarm (både medfødt eller ervervet), men kunne ikke påvise hvorvidt protesebruken hadde betydning for utviklingen av plager (Burger & Vidmar, 2016).

Studier som inkluderer voksne personer, både personer med ervervede armamputasjoner (K. Østlie et al., 2011a) og personer med medfødte misdannelser i armene (S. G. Postema, van der Sluis, Waldenlöv, Hermansson, & Monsonego-oran, 2012) tyder på at det ikke er entydig slik at protesebruk har beskyttende effekt på smerter og plager for noen av gruppene.

Østlie og kollegaer (2011) fant at ervervet amputasjon av en overekstremitet øker risikoen for selvrapportert smerte i nakken, øvre del av ryggen, skuldrene og den gjenværende armen, men fant ingen positiv effekt av protesebruk på smerter eller belastningsplager på de traumatisk amputerte, snarere tvert i mot (K. Østlie et al., 2011a).

I en 24 år lang oppfølgingsstudie av personer med reduksjonsdefekt i armene fant Postema og kollegaer ingen forskjeller hos dem som har brukt armprotese og dem som ikke har brukt armprotese når det gjaldt skjevutvikling av ryggen. De så at de strukturelle forandringene i ryggen var konsistente og at de ikke utviklet seg til klinisk relevant skoliose over tid det vil si skoliose som trenger behandlingstiltak i form av f.eks. kirurgi. Det ble også rapportert lite fysiske plager sammenlignet med tidligere studier (S. G. Postema et al., 2012).

Sjøberg og kollegaer (2014) fant at de fleste personer med CLRD bruker proteser og hjelpemidler. Fordelene ved hjelpemidlene ble beskrevet som grunnleggende, men de påpekte at rehabilitering også bør se på brukervennlighet og verdighet når en person skal utføre sine daglige aktiviteter. Flere kvinner enn menn brukte hjelpemidler i hverdagen, men ingen signifikant forskjell ble funnet. De som hadde mangel på armene brukte oftere funksjonelle proteser (myoelektrisk eller kroppsdrivne proteser). Kroppsdrivne mekaniske armproteser ble brukt utelukkende av menn i studien, mens kosmetiske proteser ble brukt i høyere grad av kvinner (Sjøberg et al., 2014).

I en tverrsnittsstudie i 2015 fant Johansen at personer med medfødt reduksjonsdefekt (arm/ben eller begge deler) rapporterte øket forekomst av kronisk smerte, hovedsakelig bilateralt, men til tross for tilbud om gratis proteser og oppfølging var det en stor del som ikke valgte å bruke protese, men foretrakk greps hjelpemidler for spesifikke aktiviteter (Johansen et al., 2015).

Biddis og Chau (2007) foretok en kritisk gjennomgang av 200 artikler som rapporterte på protesebruk i perioden 1980-2006 (Biddiss & Chau, 2007). De fant at omtrent en av fem sluttet å bruke sin armprotese, barn og voksne sett under ett. Årsaker til avvisning av protesebruk var blant annet mangel på funksjonell nytte, mindre attraktivt utseende og vekten av protesen (K. Postema, van der Donk, van Limbeek, Rijken, & Poelma, 1999). De inkluderte studiene viste svært ulike resultater noe som sannsynligvis skyldes de heterogene utvalgene og forskjeller i metodikk (Biddiss & Chau, 2007).

2.3.5 Armprotesebruk hos barn med RDA

I Sverige fant Hermansson og kollegaer (2005) at det knyttes sosiale stigma til deformiteten hos barn med RDA og at det er ulikt for jenter og gutter (L. Hermansson et al., 2005).

Studien, som så på forholdet mellom sosial kompetanse, oppførsel, emosjonelle problemer og

protesebruk hos gutter og jenter med RDA som i utgangspunktet hadde fått tilpasset en myoelektrisk protesehånd, viser at RDA og protesebruk påvirker den psykososiale tilpasningen forskjellig avhengig av kjønn. Hos jentene var redusert protesebruk forbundet med lavere skår på sosial kompetanse, mens hos guttene økte den totale kompetanseskåren med redusert protesebruk. Dette forklares blant annet med at gutter og jenter utfører forskjellige aktiviteter, ved hjelp av forskjellige gjenstander der protesen kan betraktes som et problem av guttene og som hjelp av jentene. Hovedfunnet i studien er imidlertid at svenske barn med RDA som i utgangspunktet har blitt utstyrt med en myoelektrisk protese, gjør det ganske bra. De globale resultatene viser ingen signifikante forskjeller mellom disse barna og de normative dataene.

I Sverige konkluderte Hermansson og kollegaer (2005) med at barn med RDA som brukte en myoelektrisk håndprotese var like bra tilpasset psykososialt som deres funksjonsfriske jevnaldrende, men at det var knyttet sosiale stigma til deformiteten og at det var ulikt for jenter og gutter. Jentene viste lavere kompetanseskår ved sjeldnere protesebruk. For guttene var dette motsatt (L. Hermansson, Fisher, Bernspang, & Eliasson, 2005).

I 2006 undersøkte James og kollegaer virkning av protesebruk på funksjon og livskvalitet hos barn med unilateral (ensidig) underarmdysmeli (James et al., 2006). Forskerne konkluderte her med at armproteser kan bidra positivt i forhold til sosial akseptering eller være et nyttig redskap i spesialiserte aktiviteter. Armproteser synes derimot ikke å påvirke barnas funksjon eller livskvalitet, som er nesten normal for barn med ensidig underarmdysmeli uavhengig om de bruker protese eller ikke. I lys av disse funnene stiller James og kollegaer (2006) spørsmålsteget ved det rutinemessige tilbudet om tilpasning av proteser til svært små barn (fra 6 måneder) og ved oppfordringen om å bruke protese for å oppnå bedre funksjon og livskvalitet.

En studie publisert av Reinkingh og kollegaer i 2012 viser at stumpsensibiliteten til barn med reduksjonsdeformitet i armene er svært god. Den er faktisk bedre enn sensibiliteten i den uaffiserte armen ifølge denne studien. Denne utmerkede sensibiliteten gir en høy grad av funksjonalitet sammenlignet med en hard plastikkprotese (Reinkingh, Reinders-Messelink, Dijkstra, Maathuis, & van der Sluis, 2014). Påføring av protese på en stump betyr at man hindrer tilgang til den følsomme og funksjonelle stumpen og tillegger kroppen ekstra vekt/tyngde.

3 Metode

3.1 Design

Studien er en observasjonell tverrsnittsstudie (Altmann, 1991, s. 75) som kartlegger og beskriver forskjeller mellom to grupper på et tidspunkt. Strategien for å besvare forskningsspørsmålet (designet) er å beskrive selvrapporterte data (observasjoner) i RDA-gruppen og kontroll-gruppen gitt som svar i et spørreskjema (metoden). Slike beskrivende tverrsnittstudier kalles ofte surveys på engelsk (ibid).

Studien undersøker funksjon i arm, skulder og hånd, tilfredshet med livet og generell helse i de to utvalgene, samt forekomsten av protesebruk i RDA-gruppen. Det ble stilt noen retrospektive spørsmål tilbake til barndommen med hensyn til tilpasning og bruk av protese. RDA- gruppen ble matchet med en gruppe kontrollpersoner, men ikke på individnivå.

Det ble benyttet en kvantitativ forsknings metode for å besvare problemstillingene. Dette innebærer at man tar utgangspunkt i tidligere forskningsresultater og egne erfaringer på området, strukturerer teorien og formulerer testbare hypoteser, samt gjennomfører statistiske analyser og vurderinger relatert til den oppstilte teorien (Olsson & Sörensen, 2003).

Fordelen med det valgte designet er det er relativt lite ressurskrevende, mange ulike variabler kan studeres og det er hypotesegenererende (Laake, Hjartåker, Thelle, & Veierød, 2007).

Wahl og Hanestad fastlår at selvrappotering er den beste måte å få kunnskap om pasienters livskvalitet på (Wahl & Hanestad, 2004, s. 36). Strukturerte spørreskjemaer synes å være den beste måten å for å ivareta pasientens subjektivitet i kvantitativ forskning (Wahl & Hanestad, 2004, s. 36). Tverrsnittstudier gir et oversiktsbilde av situasjonen ved å sammenlikne de ulike gruppene (Ibid, s. 37).

Ulempen er at designet ikke nødvendigvis gir informasjon om årsakssammenheng (kausalitet) (Laake et al., 2007).

3.2 Personvern

3.2.1 Godkjenninger

Studien er en del av et medisinsk og helsefaglig forskningsprosjekt (2013/1320/«Armdysmelistudien») som, i tråd med helseforskningsloven (helseforskningsloven, 2008), er lagt frem for **REK Sør-Øst A** (regional etisk komite for medisinsk og helsefaglig helseforskningsetikk) og personvernombudet på Oslo universitetssykehus (forskningsansvarlig institusjon). Godkjenning på at det er medisinsk, juridisk og vitenskapelig forsvarlig foreligger (Vedlegg 7. 1). Videre er studien forelagt og godkjent av Kvalitetssikringsutvalget ved Avdeling for helsefag ved Universitetet i Oslo (Vedlegg 7. 2).

Forskningsprosjektets data oppbevares forsvarlig og i tråd med personopplysningsforskriften kapittel 2 (Personopplysningsloven, 2018), og Helsedirektoratets veileder for «Personvern og informasjonssikkerhet i forskningsprosjekter innenfor helse og omsorgssektoren» (Helsedirektoratet, 2006).

3.2.2 Samtykke

Deltagerne som var ønsket til studien (se punkt 3.3.1 Populasjonen og utvelgelse), fikk tilsendt informasjon om studien i posten, inkludert samtykkeskjema og spørreskjema. Samtykket bygget på spesifikk informasjon om forskningsprosjektet for å sikre at respondentene ga informert, frivillig, uttrykkelig og dokumenterbart samtykke til deltagelse (J. fr. Helseforskningsloven § 13) (helseforskningsloven, 2008).

Alle deltakere i undersøkelsen hadde til enhver tid rett til å trekke seg fra undersøkelsen. Deltakere kan også be om at opplysningene de har gitt skal slettes (Helseforskningsloven § 13) (helseforskningsloven, 2008), så lenge dataene ikke er anonymisert eller allerede har inngått i vitenskapelig arbeid.

3.3 Utvalg

3.3.1 Populasjonen og utvelgelse

RDA-gruppen:

I studien er det valgt å inkludere voksne personer ≥ 18 år (pr 31. 06. 13) med reduksjonsdefekt kun i arm, som mangler hele eller deler av en arm, eller begge armene, som følge av en medfødt feildannelse og som ikke er ledd i syndrom eller annen sammensatt tilstand. Det vil si ICD 10 diagnosekodene Q71.0-9. Hvorvidt det er en unilateral eller bilateral reduksjonsdefekt går ikke frem av diagnosekodene og alle med reduksjonsdefekt på armene er derfor inkludert. Pasienter som i tillegg har reduksjonsdefekt på underekstremitetene, mangler norsk kunnskaper eller mangler samtykkekompetanse er ekskludert.

Inklusjonskriterier:

- Voksne ≥ 18 år pr 31.06.13
- Mangel på hele eller deler av en arm, eller begge armene (ICD 10 diagnosekodene Q71.0-9)
- Reduksjonsdefekt kun i overekstremitet
- Registrert ved Oslo universitetssykehus

Eksklusjonskriterier:

- Ervervet amputasjon
- Medfødt feildannelse som ledd i et syndrom eller annen sammensatt tilstand
- Reduksjonsdefekt på underekstremitetene
- Manglende norsk kunnskaper
- Manglende samtykke kompetanse

Kontroll gruppen:

Inklusjonskriterier:

- Voksne ≥ 18 år pr 31.06.13
- Fra den generelle norske befolkningen

Eksklusjonskriterier:

- Manglende norsk kunnskaper
- Manglende samtykke kompetanse

Oslo universitetssykehus har flest pasienter med reduksjonsdefekt i Norge og har representasjon fra fire helseregioner (N= 186 personer ≥ 18 år pr 31.06.13 med reduksjonsdefekt i arm). Pasientlister ble hentet ut av pasientregisteret ved hjelp av Data og analyseavdelingen på sykehuset. Navn, personnummer, adresse, diagnosekode ble hentet ut. Riktig diagnosekode (ICD 10 Q71.0-9) ble verifisert ved hjelp av Oslo universitetssykehus pasientjournal. Alle pasientene som passet til inklusjonskriteriene fikk tilbud om å delta i studien – et såkalt bekvemmelighetsutvalg.

Det viste seg senere gjennom respondentenes egen rapportering (tegning og beskrivelse på spørreskjemaet) og den kliniske undersøkelsen (i hovedstudien) at en del pasienter hadde mangelfull eller feil diagnosekoding i Oslo universitetssykehus registeret. Alle pasientene som etter verifiseringene ikke passet til inklusjonskriteriene fikk journalene rettet og ble ekskludert fra studien.

3.3.2 Kontrollgruppe

For å sammenligne funksjon, helse relatert livskvalitet og tilfredshet med livet hos RDA-gruppen med et tilfeldig utvalg av befolkningen, ble det trukket en kontrollgruppe tilfeldig utvalgt fra den norske generelle befolkningen innen aldersspennet. For hver person ble det trukket seks kontrollpersoner. Navn, personnummer og adresse ble hentet ut av EVERY Information Services (ledende nordisk IT-tjeneste og programvareselskap) som har avtale med Skatteetaten om distribusjon av Folkeregisteret. Demografiske faktorer som kjønn og

alder ble ikke matchet, da det i følge statistiker er kompliserende og binder opp data. (Det er bedre å justere for dette etterpå i en regresjonsanalyse).

3.3.3 Styrkeberegning

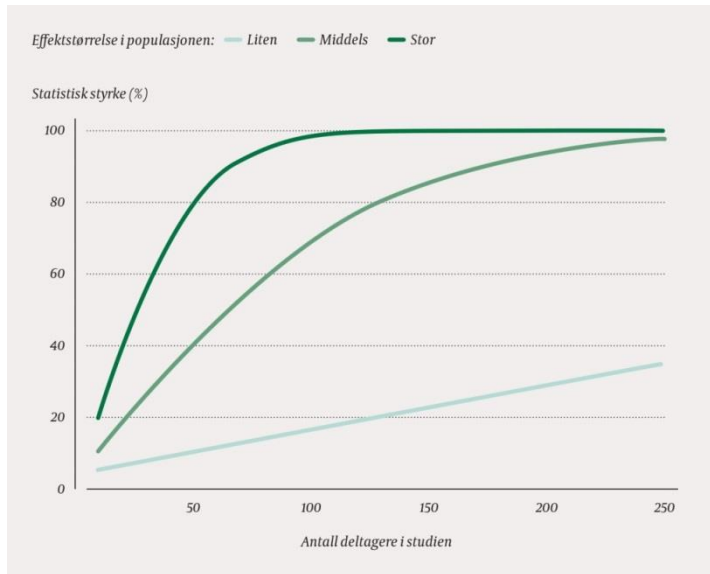
En styrkeberegning er å anslå på forhånd hvor stor en effekt enten kan forventes å være, eller hvor stor den bør være, for at den skal ha klinisk betydning og beregne sannsynligheten for at resultatet av studien med et gitt antall individer blir statistisk signifikant (Pripp, 2017).

«Den statistiske styrken er sannsynligheten for et statistisk signifikant resultat, under forutsetning av at våre antagelser er korrekte» (Pripp, 2017). I statistisk terminologi kan styrken beskrives som sannsynligheten for at nullhypotesen vil bli forkastet av den statistiske testen dersom den alternative hypotesen er sann (Pripp, 2017).

Det som gir styrke i en studie er antall deltagere, effektstørrelsen, og hvor homogent utvalget er, samt design og hvilke statistiske tester som blir brukt (Pripp, 2017). «Jo større effektstørrelse, desto større statistisk styrke – og desto færre deltagere trengs for å finne statistisk signifikante resultater» (ibid). Mer like eller homogene respondenter gir lavere standardavvik og økt statistisk styrke (Pripp, 2017)

Styrken forteller oss hvor mange personer som minimum bør inkluderes i hver gruppe, for å være sikker på at forskjellene vi eventuelt finner ikke skyldes tilfeldigheter (ibid).

Sammenhengen mellom økt antall deltagere og statistisk styrke er illustrert i figur 1 som er hentet fra Tidsskriftet for den norske legeforening (Pripp, 2017).



Figur 1. Sammenhengen mellom antall deltagere i studien og statistisk styrke ved liten, middels eller stor effektstørrelse, Cohens d lik henholdsvis 0,2, 0,5 eller 0,8 ((Cohen, 1988)). Økt antall deltagere i studien gir økt statistisk styrke og større sannsynlighet for å kunne påvise en statistisk signifikant forskjell mellom to utvalg (p -verdi $< 0,05$) (Pripp, 2017).

I følge Pripp (2017) anbefaler statistikere «ofte 5 % sannsynlighet for å hevde effekt når denne ikke er sann (vanlig kalt α eller signifikansnivået) og 20 % sannsynlighet for å hevde ingen effekt når det faktisk er en sann effekt (ofte kalt β)». I følge Burmeister (2012) er den statistiske styrken $1 - \beta$, noe som da gir en statistisk styrke på 80 % (Pripp 2017).

Begrepene statistisk og klinisk signifikans må skilles på da de ikke kan ikke forstås som det samme (Pripp, 2017). Statistisk signifikans er et matematisk definert begrep, mens definisjonen av klinisk signifikans langt fra er like entydig (ibid). Selv om det burde være enighet i det medisinske fagmiljøet om hvor stor en effekt skal være for at den skal ha klinisk relevans, så er det er ikke alltid tilfellet (Pripp 2017).

Det som ifølge Pripp (2017) kan være til hjelp i vurderingen av klinisk betydning, er resultater fra tidligere studier, eller bruk av generelle statistiske uttrykk for effektstørrelse som f.eks. Cohens d (Cohen, 1988). Den uttrykker i følge Pripp (2017) «forskjellen i gjennomsnitt mellom to grupper relativt til standardavviket og angir liten, middels eller stor effekt» (Pripp, 2017).

Før studien ble startet ble det gjort en a priori styrkeberegning av statistiker med utgangspunkt i følgende: Ved Oslo universitetssykehus var det 196 registrerte pasienter ≥ 18 år med reduksjonsdefekt i arm (Q71 kode) pr 31.12.11. Medisinsk fødselsregister i Bergen (MFR) har beregnet at 9 % har reduksjonsdefekt på *både* arm og ben. Ut fra dette prinsippet estimerte

vi at det i Oslo universitetssykehus er registret 178 (91 % av 196) individer ≥ 18 år pr 31.12.11 som har reduksjonsdefekt *kun* i arm.

For å gjøre styrkeberegningen brukte statistiker kohorten som var registrert ved Oslo universitetssykehus pr 31.12.11 med RDA (Q71: N=178, Q71.0-3: N=108). Denne kohorten ville ifølge statistiker ha et tilstrekkelig antall pasienter for å sammenligne med normative data og innad i gruppen. Eksempelvis, for en forskjell tilsvarende en medium effekt størrelse (gjennomsnittlig differanse lik et halvt standardavvik) mellom to grupper innad i kohorten, trenger man 63 pasienter i hver gruppe for få 80 % styrke ved 5 % signifikansnivå.

Det må for ordens skyld bemerkes at størrelsen på utvalget med kun reduksjonsdefekt på arm endret seg fra N=178 til N=186 etter styrkeberegningen som følge av nyere dato for uttrekk av pasientdata, men også på grunn av pågående kvalitetssikring av registeropplysningene i Oslo universitetssykehus.

3.4 Datainnsamling

Denne studien tar utgangspunkt i to spørreundersøkelser; en til pasienter med reduksjonsdefekt i armene, ICD 10 diagnosekode Q71.0-9, og en tilsvarende spørreundersøkelse til den generelle befolkningen i Norge med unntak av spørsmål rettet spesifikt mot reduksjonsdefekt og protesebruk.

3.4.1 Rekruttering

Deltagerne fikk tilsendt informasjon om studien, informasjonsskriv, samtykkeskjema og spørreskjema (vedlegg 3, 4 og 5) i posten og kunne fylle spørreskjemaet ut etter fremgangsmåter angitt på skjemaet. Skjema skulle returneres innen tre uker. Respondentene ble purret dersom de ikke hadde svart innen fristen. Deltakerne fra den generelle norske befolkningen (kontrollene) ble ikke purret. Deltakerne som returnerte utfylt spørreskjema og som oppfylte kriteriene ble inkludert i studien.

For å motivere til deltagelse ble det trukket en vinner av en i-Pad blant deltakerne som svarte innen fristen.

3.4.2 Spørreskjema

Det er benyttet enkle, reliable og validerte instrumenter for å få svar på forskningsspørsmålene.

Måleinstrumentene som ble brukt for å måle funksjonsnivå, tilfredshet med livet og helse relatert livskvalitet var henholdsvis **KvikkDASH** (Dysfunksjon i arm, skulder og hånd), **EuroQoL-5D-5L VAS skala** (Spørreskjema om helse relatert livskvalitet) og **SWLS** (Satisfaction with Life Scale/ tilfredshet med livet skala). I tillegg ble det stilt spørsmål om demografiske data som kjønn, alder, boforhold/sivilstatus, utdanningsnivå og arbeid.

Fra pasientgruppen ble det i tillegg innhentet data rettet spesifikt mot reduksjonsdefekt og protesebruk. For å studere gruppens spesielle helse og problemstillinger (det vil si diagnose, tilpasning og bruk/ ikke-bruk av protese) ble et egenutviklet spørreskjema benyttet. Både spørreskjemaene som ble benyttet til pasientene og kontrollene er vedlagt. (vedlegg 5 og 8)

Spørreskjemaene ble utarbeidet i samarbeid med fagfolk på Oslo universitetssykehus, Sykehuset innlandet og noen spørsmål ble hentet fra en tilsvarende studie gjort på armamputerte (K. Østlie et al., 2011b). Spørsmålene ble testet av fagfolk (n=5), pasienter (n=5) og venner og familie (n=5). Tilbakemeldinger ble hensynstatt.

Forskerne la inn skjemaene i SPSS i henhold til utarbeidet kodebok. Spørreskjemaene oppbevares innelåst av Oslo universitetssykehus.

3.4.3 Måleinstrumenter

Demografiske variabler. Demografiske variabler som kjønn, alder, boforhold, utdanningsnivå, arbeidsstatus og ICD 10 diagnosekode og protesebruk ble registrert.

ICD 10 Diagnosekode Q71.0-9 Kategorisk nominal variabel med kategorier for hver ICD-10 kode. I kategoriene med færre enn fem individer skal kategoriene slås sammen i de statistiske analysene. Respondentene ble bedt om å tegne sin deformitet på en figur i spørreskjemaet Merk av nivå for dysmelien og tegn dysmelien så godt du kan på figuren. I tillegg hentes diagnose ut fra journal og register på Oslo universitetssykehus.

Protesebruk. Respondentene ble spurt: *Har du noen gang fått tilpasset protese?: ja, nei.*

Protesebruk – forekomst. Respondentene ble bedt om å svare på om protese brukes i dag: *Bruker du protese i dag?: ja, nei.*

Protesebruk – hyppighet. Respondentene ble bedt om å svare på hvor ofte de bruker protese i dag: *Daglig. (Det vil si 0-4 timer, 5-8 timer, mer enn 8 timer), 1-6 ganger i uka, 1-4 ganger i måneden, sjeldnere*

Funksjon

Funksjon er vurdert ved hjelp av det anatomisk, regionspesifikke spørreskjemaet KvikkDASH (QuickDASH); den norske kortversjonen av måleinstrumentet DASH (Finsen, 2008). I stedet for 30 spørsmål (items), inkluderer KvikkDASH 11 spørsmål for å måle fysisk funksjon og symptomer hos personer med en eller flere muskelskjelettlidelser i øvre i arm, skulder og hånd. Spørsmålene besvares ved å krysse av ett av fem svaralternativer, som senere gis poengverdi fra 1 til 5.

KvikkDASH er skåret i to valgfrie moduler for aktiviteter: en dysfunksjon og symptomdel med elleve spørsmål og en del med fire spørsmål som beskriver aktiviteter som krever høy grad av fysisk ytelse innen sport/musikk eller arbeid. Kun dysfunksjon/symptom delen ble brukt i denne studien. Se vedlagt spørreskjema for de elleve ulike spørsmålene og gradering av svaralternativene (vedlegg 5, side 9 i skjemaet).

De elleve ordinale kategoriske KvikkDASH variablene ble slått sammen (transformert) til en kontinuerlig variabel kalt sumskår KvikkDASH ved at tallverdiene (1-5) på svarkategoriene ble summert. Elleve spørsmål ga en maksskår på 55 poeng. Det må være svar på minst 10 spørsmål for å beregne en KvikkDASH skår. Der det kun var 10 svar ble gjennomsnittet beregnet og imputert på det manglende svaret. Sumskåren ble deretter beregnet ved hjelp av formelen: $\text{KvikkDASH skår} = \left[\frac{\text{summen av antall svar}}{\text{antall svar}} - 1 \right] \times 25 = \text{min } 0 \text{ (maks } 100)$. Ved å gjøre dette utnyttes informasjonsmengden i materialet bedre, normalfordelte data oppnås og dataene blir bedre egnet for analyse og hypotesetesting (Kennedy & American Academy of Orthopaedic Surgeons, 2011).

Kartleggingsverktøyet QuickDASH er et anerkjent skjema brukt verden over, og er som fullversjonen DASH, valid (gyldig), reliabelt (pålitelig) og responsivt (følsomt) og kan brukes for kliniske og eller forskningsformål (Kennedy & American Academy of Orthopaedic Surgeons, 2011). Skjemaet er oversatt 50 språk og dialekter. Til norsk ved Vilhelm Finsen i

2008 (Finsen, 2008). I den norske oversettelsen har Finsen rapportert tilpasningsprosessen, men ikke på måleegenskapene (det vil si intern konsistens, test-retest reliabilitet og interrater reliabilitet, samt validitetstesting og responsiveness).

Egenvurdert helserelatert livskvalitet

EuroQol-5D (EQ-5D) er utviklet av en internasjonal gruppe forskere i Europa, The EuroQol Group og er et mye brukt mål på generell helserelatert livskvalitet validert for ulike pasientgrupper (Holm, 2013). Instrumentet består av to deler; en beskrivende kategorisk del og en visuell analog skala (VAS) (The EuroQol Group, 1990) (van Reenen & Janssen, 2015).

Den generelle beskrivende delen består av fem domener (mobilitet, egenomsorg, vanlige aktiviteter, smerter / ubehag, angst / depresjon). Hver dimensjon har fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer. Respondenten blir bedt om å indikere hans / hennes helse tilstand ved å krysse av i boksen med den mest relevante setningen i hver av de 5 dimensjonene. Sifrene til de fem dimensjonene kan kombineres i et 5-sifret tall som beskriver respondentens helse tilstand, for eksempel 13245 (van Reenen & Janssen, 2015). Den individuelle helseprofil omregnes til en indeks- score ved hjelp av en standardisert indeks-verdi kalkulator (Van Hout et al., 2012). Det er ikke utarbeidet norske indeks skårer for testen. Verdier fra en dansk studie (Sørensen, Davidsen, Gudex, Pedersen, & Brønnum-Hansen, 2009) benyttes i analyser for norske forhold, men vi har ikke benyttet denne muligheten i vår studie.

Den visuelle skalaen (EQ-VAS) registrerer respondentens selvverderte helse i dag på en vertikal, visuell analog skala som er gradert fra 0-100 hvor 0 utgjør «den verste helsen du kan forestille deg» og 100 utgjør «den beste helsen du kan forestille deg». Respondentene bes om å markere et kryss på skalaen for å indikere hvordan helsen er i dag og deretter skrive tallet merket på skalaen i en boks ved siden av skalaen (van Reenen & Janssen, 2015). Denne informasjonen kan brukes som et kvantitativt mål på helse som den bedømmes av de enkelte respondentene (ibid). EQ-5D-5L har vist god validitet og reliabilitet innen ulike helsetilstander (ibid). Instrumentet er oversatt til mange språk inkludert norsk. Papirutgaven av instrumentet kan brukes vederlagsfritt etter søknad til Euro Qol Group Executive Office (Vedlegg 9).

Tilfredshet med livet

Måles ved hjelp av SWLS: Satisfaction with Life Scale som er et kartleggingsverktøy med fem utsagn om tilfredshet med livet som et hele (ED Diener, Emmons, Larsen, & Griffin, 1985; W. Pavot & Diener, 2009). Respondentene bes om å rangere sin enighet med fem uttalelser. Hvert spørsmål skåres på en 7-punkts Likert skala der 1 er lik «stemmer dårlig» og 7 er lik «stemmer perfekt». Skårene blir slått sammen til en sumskår der lavest mulig skår er 5 og høyest mulig skåre er 35. Sumskåren er valgt delt med antall spørsmål, da det synes passende å relatere skåren til likertskalaen, i stedet for å bruke den summerte aggregatpoengsummen, og da er cutoffs for poengberegning i følge Diener (2006) som følger (aggregatsummen står i parentes): 6-7 (30 – 35)=veldig høy poengsum; svært fornøyd, 5-6 (25- 29)=høy poengsum, fornøyd, 4-5 (20 – 24)=gjennomsnittlig poengsum; ganske fornøyd, 3-4 (15 – 19)=litt under gjennomsnittet i livstilfredshet; litt misfornøyd, 2-3 (10 – 14)=misfornøyd og 2-1 (5 – 9)=svært misfornøyd (E. Diener, 2006).

Kartleggingsverktøyet er utviklet for å fange opp individers subjektive evaluering av eget liv. Instrumentet er tilgjengelig på mer enn 20 språk og kan brukes vederlagsfritt (Vittersø, 2009). Det er et av de mest brukte måleinstrumentene for å fange opp subjektivt velvære generelt og livstilfredshet spesielt (ibid). SWLS har god intern konsistens med en Chronbach's alpha koeffisient på 0,85 (William Pavot, Diener, Colvin, & Sandvik, 1991). Litteraturen viser dessuten relativt godt samsvar mellom test-retest-reliabilitet for tester tatt med korte mellomrom (Vittersø, 2009). Med hensyn til validitet er tilfredshet med livet her forstått intuitivt, og ifølge Vittersø (2009) er det gjort relativt lite arbeid for å utdype hvilke teoretiske betydninger begrepet livstilfredshet kan tillegges. Vittersø (2009) konkluderer likevel med at SWLS må kunne ansees som et reliabelt og relativt validt globalt mål på subjektivt velvære og livstilfredshet i vestlige land (Vittersø, 2009).

3.4.4 Dataanalyser

I dataanalysen er formålet å kategorisere de innsamlede dataene på en måte som kan beskrive og analysere det vi har funnet. Målet i dataanalysen er å forenkle datamengden i det innsamlede datamaterialet for å gjøre det mulig å besvare problemstillingen vår.

I denne tverrsnittstudien er det brukt kvantitative analysemetoder for å sammenlikne to uavhengige grupper, der nullhypotesen er at gruppene er like; gruppene er beskrevet og sammenliknet gjennom deskriptive analyser og statistiske analyser av forskjeller.

Data er bearbeidet og analysert ved hjelp av det statistiske dataprogrammet IBM SPSS (Statistical Package for Social Sciences) Statistics Version 23 (SPSS, 2015).

Dataene er gjennomgått og sjekket for feil. Dataene er manipulert ved at det er generert nye variabler: sumskår variabler (SWLS, KvikkDASH, EQ-VAS), grupper på kategoriske variabler er slått sammen (bostatus, utdanningsnivå, protesebrukshyppighet), kontinuerlig variabel er gjort om til kategorisk variabel med flere grupper (alder i 3 grupper). Data for variablene tilfredshet med livet og dysfunksjon i arm, skulder og hånd er behandlet i samsvar med de angitte formlene i manualen for hvert instrument.

Kategoriske data er oppsummert, presentert og beskrevet i tabeller. Ved frekvenser under 100 oppgis frekvensen og % en uten desimal er satt i parentes. Kontinuerlige data er først undersøkt med histogram og q-q plot, og oppsummert, presentert og beskrevet med boksplokk medianer og kvartiler (ikke normalfordelte data) (Frøslie, 2015).

Ved sammenlikning av to eller flere grupper med uavhengige, kontinuerlige data der nullhypotesen er at gruppene er like er det brukt henholdsvis en Mann Whitney U test og en Kruskal Wallis test for å vurdere om det er signifikante forskjeller (Frøslie, 2015).

Statistisk signifikansnivå er satt til 0,05 og det viser sannsynligheten for observasjonene våre under forutsetning av at null-hypotesen er sann. Dette betyr med andre ord at vi finner det akseptabelt med fem % risiko for å ta feil (Kjærstad, 2018).

I tillegg til en p -verdi $\leq 0,05$ evalueres statistisk relevans på bakgrunn av klinisk relevans, hvordan studien er designet, hvilke metoder som er brukt for å minimere tilfeldigheter, bias og konfundering og hva tidligere studier har vist (Frøslie, 2015).

Ingen p - verdi kan i seg selv gjøre resultatet betydningsfullt (Kjærstad 2018). Kjærstad hevder at: «signifikansnivået» rett og slett ikke kan være gjenstand for et rigid valg som gjøres før en har vurdert størrelsen på effekten». Målet er ifølge Kjærstad å estimere størrelsen på en mulig effekt og diskutere rimelige odds for å satse på at den er reell (Kjærstad, 2018). Det essensielle er å estimere de aktuelle effektene i den bakenforliggende populasjonen.

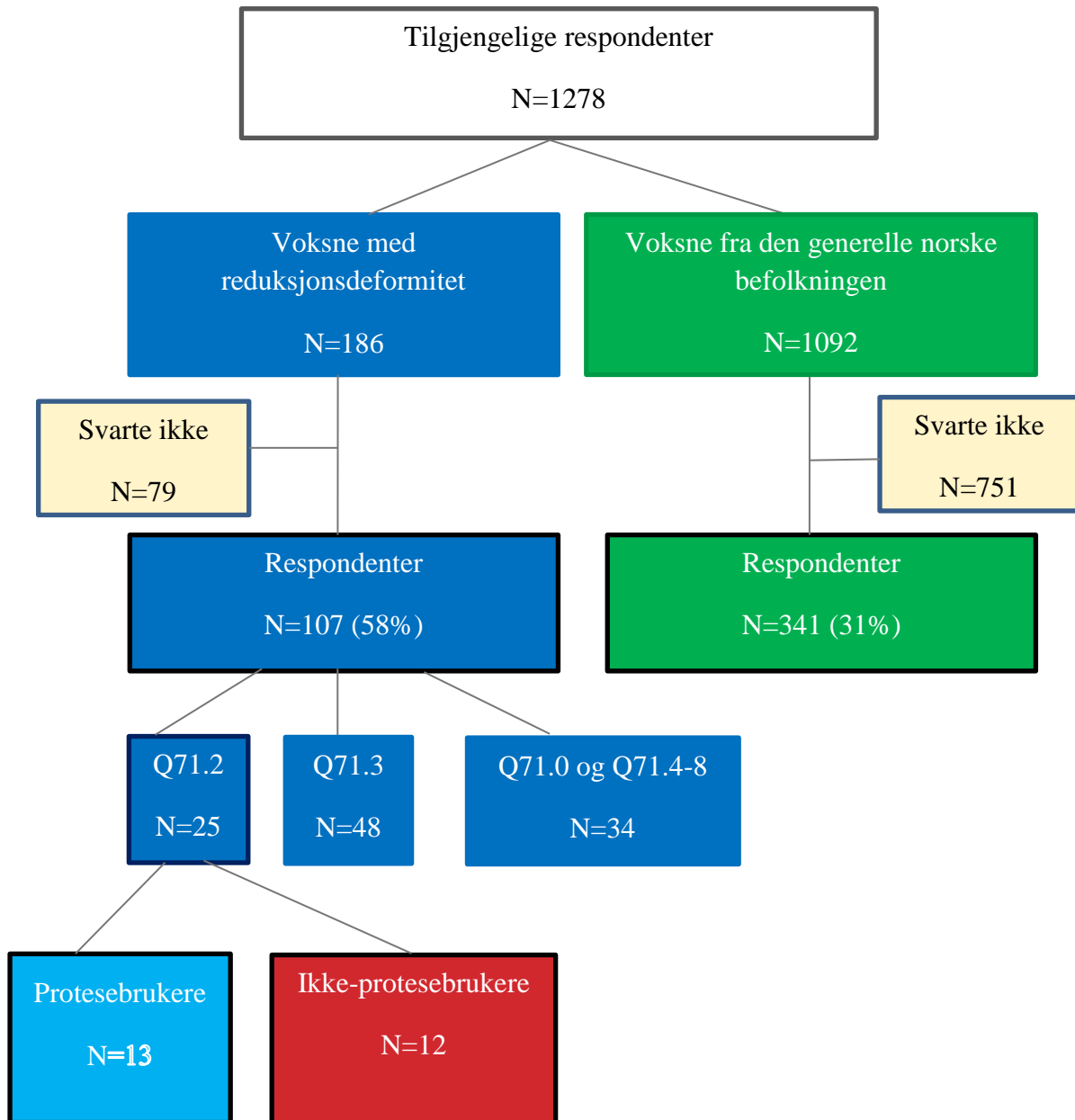
Effektstørrelsen (ES) er i denne studien knyttet til forskjellen mellom to grupper og beregnes på grunnlag av forskjellen mellom gruppegjennomsnittene det vil si hvor uttalt eller markant en forskjell er (Svartdal, 2018). Konkret gjøres dette ved at gjennomsnittsforskjellen mellom gruppene divideres med standardavviket i gruppene (Svartdal, 2018).

Statistikerer Jacob Cohen (1988) foreslo ulike retningslinjer for å vurdere forskning som involverer sammenlikning av ulike grupper og sammenhenger mellom variabler (Svartdal, 2018). Vår studie undersøker forskjeller og det benyttes følgende prinsipp for gruppesammenlikning og tolkning av effektstørrelsen: 0,20=liten effekt, 0,50= medium effekt og 0,80= stor effekt.

En vurdering av reel signifikans, vil bli påpekt og underbygget i diskusjonsdelen.

4 Resultater

4.1 Utvalg



Figur 2 Flyttdiagram over respondentene.

Det ble sendt ut spørreskjemaer til i alt 186 pasienter i RDA-gruppen og 1092 kontroller fra den norske generelle befolkningen. Flytdiagrammet (figur 1) viser antall spørreskjemaer sendt ut til personer med reduksjonsdefekt i armene (RDA) (pasienter) og personer fra den generelle norske befolkningen (kontroller), og antall svar og svar %.

Demografiske data

Demografiske data over RDA-gruppen og kontrollgruppen er presentert i Tabell 1.

Tabell 1 Demografiske data

Variabler	RDA (n=107)	Kontroller (n=341)
Kjønn: mann	51 (48)	168 (49)
Alder (år), median (Q1, Q3)	27 (22, 36)	48 (35, 61)
Alder kategorisert i 3 grupper		
18-30år	70 (65)	63 (19)
31-50år	24 (22)	130 (38)
51-74år	13 (12)	147 (43)
Utdannelsesnivå		
Ingen eller lav	7 (7)	25 (7)
Medium	47 (44)	115 (34)
Høyt	53 (50)	198 (58)
Boforhold/Sivilstatus		
Bor alene	30 (28)	53 (16)
Samboer eller gift	52 (49)	248 (73)
Bor med andre	24 (22)	39 (11)
I arbeid		
Lønnet arbeid, ja	77 (72)	255 (75)
Lønnet arbeid, nei	30 (28)	85 (25)
RDA - affisert side		
Venstre	51 (48)	I/A
Høyre	43 (40)	I/A
Begge	13 (12)	I/A
RDA – nivå i studien (ICD10 diagnosekoder)		
Q71.0 Medfødt fullstendig mangel på overekstremitet	1 (1)	I/A
Q71.2 Medfødt mangel på både underarm og hånd	25 (23)	I/A
Q71.3 Medfødt mangel på hånd og fingre	48 (45)	I/A
Q71.4 Longitudinal reduksjonsdefekt i radius	13 (12)	I/A
Q71.5 Longitudinal reduksjonsdefekt i ulna	9 (8)	I/A
Q71.6 Spaltehånd	3 (3)	I/A
Q71.8 Andre spesifiserte reduksjonsdefekter i overekstremitet(er)	6 (6)	I/A
Q71.9 Uspesifisert reduksjonsdefekt i overekstremitet	2 (2)	I/A

NOTE. Resultatene presenteres ved hjelp av frekvenser (%) for kategoriske variabler og median (Q1, Q3) for kontinuerlige variabler. Manglende verdier er ikke høyere enn 1 % for noen av variablene. Kontrollene er individer tilfeldig trukket fra den generelle befolkningen. Forkortelser: RDA=reduksjonsdefekt i armene ICD10 kode Q71.0-9. I/A= Ikke aktuelt. Q1=nedre kvartil og Q3=øvre kvartil. Noen tall summerer ikke til totalen på grunn av opphøyningsfeil som følge av omgjøring til %.

Studien inkluderer 107 respondenter med congenital (medfødt) reduksjonsdefekt i armene (51 menn og 66 kvinner). De var 18-69 år (gjennomsnittlig 31 år, median 27 år) (Tabell 1).

Beregningen av begge sentralmålene viser at aldersfordelingen er skjev; gjennomsnittet som er mer følsomt for ekstreme observasjoner ligger lenger ut i halen. Median er mer robust i forhold til ekstremobservasjoner.

Det var 49 personer (46 %) som rapporterte at de hadde fått tilpasset protese. Kontrollgruppen bestod av et tilfeldig uttrekk fra normalbefolkningen, i alt 341 personer. Svarprosenten var 31 %.

Bortsett fra alder og boforhold var det ingen signifikante forskjeller mellom RDA-gruppen og kontrollgruppen når det gjaldt demografiske data.

Funksjon og livskvalitet Ved å undersøke histogram og Q-Q-plott i begge utvalgene med hensyn til funksjon i arm, skulder og hånd, tilfredshet med livet og generell helse finner jeg at dataene ikke er normalfordelte (symmetriske). Tydeligst er dette i kontrollgruppen der responsvariablene har mange ekstremverdier og eller uteliggere.

Skårene på funksjon i arm, skulder og hånd har i begge utvalgene en positiv skew (skjevhet) (et begrep som beskriver asymmetrien i utvalget) noe som innebærer at de fleste skårene er samlet i enden av skalaen med lave skår og med en hale mot de høye skårene (høyreskjev fordeling). På KvikkDASH skalaen betyr dette at de fleste respondentene har skåret en høy grad av funksjon. Skårene på tilfredshet med livet og generell helse har en negativ skew i begge utvalgene noe som betyr at de fleste skårene er samlet i den ene enden av skalaen med høy skår og med en hale mot de lave skårene (venstreskjev fordeling). På skalaene SWLS og VAS betyr dette at de fleste respondentene har skåret henholdsvis en høy tilfredshet med livet og høy generell helse.

Kurtosis, et begrep som beskriver hvor spiss eller samlet fordelingen er, er negativ på SWLS variabelen for RDA-gruppen og indikerer en relativt flat distribusjon som indikerer større variasjon og uteliggere, mens på alle de øvrige variablene er det en positiv kurtosis som indikerer en mer samlet distribusjon. Uteliggerne og ekstremverdiene i kontrollgruppen beholdes fordi disse respondentene har svart innenfor området av mulige verdier, og 5 % trimmet mean og mean er relativt like, henholdsvis 5,6 og 7,7 for funksjon, 5,2 og 5,3 for tilfredshet med livet, 77,2 og 76,3 for opplevd generell helse.

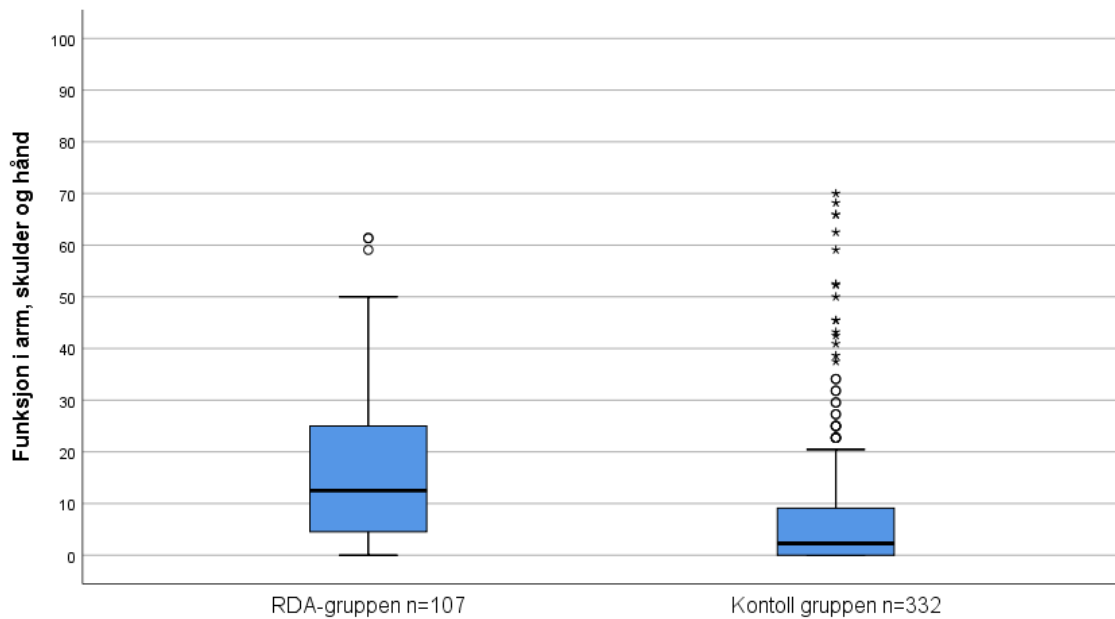
Ut fra tolkningen om at dataene i hovedsak er skjevfordelte benyttes ikke-parametriske statistiske beskrivelser og tester som ikke forutsetter normal fordelte data.

For å oppsummere de kontinuerlige variablene i studien benyttes boksploTT for å sammenlikne gruppene; en boks for hver gruppe i et felles boksploTT. Et boksploTT anskueliggjør distribusjonsformen til gruppene og ser ut som en boks med værhaar (Røislien & Frøslie, 2013). For å lage et boksploTT sorteres alle tallene i stigende rekkefølge. Kvartilene er de tre tallene som deler dataene i fire like store deler. Det midterste tallet kalles median og deler dataene i to like store deler. Kantene på boksen i boksploTTet er nedre kvartil (Q1) og øvre kvartil (Q3) (Røislien & Frøslie, 2013). Halvparten av målingene er mellom nedre og øvre kvartil og utgjør boksen, en fjerdedel av målingene er lavere enn nedre kvartil (de 25 % minste tallene) og en fjerdedel er høyere en øvre kvartil (de 25 % største tallene) (tegnes som streker). Interkvartil range (IQR), også kalt kvartildifferansen eller kvartilbredden, betegner differansen mellom første og tredje kvartil, altså Q3 minus Q1. Tall som ligger ganske langt ($IQR*1,5$) eller veldig langt ($IQR*3$) utenfor det normale (boksen) kalles uteliggere og ekstremverdier. Disse markeres som rundinger eller stjerne i boksploTTet. Ved hjelp av boksploTTene sammenlignes således resultatene i de to gruppene med hensyn til verdiområde, tyngdepunkt (medianene), spredning (kvartilbreddene) og skjevhet.

Ingen av sumskårvariablene hadde mer enn 2 % manglende data med unntak av sumskår variabelen SWLS i kontrollgruppen som hadde 5, 9 % missing data (n=321) og sumskårvariabelen KvikkDASH i kontrollgruppen som hadde 2, 6 % missing data (n=332).

4.1.1 Funksjon i arm, skulder og hånd

BoksploTTet i figur 3 viser funksjon i arm, skulder og hånd i RDA-gruppen og kontroll gruppen. Kontrollgruppen skåret bedre på funksjon enn RDA-gruppen; både maksverdi, øvre kvartil, median og nedre kvartil er lavere enn tilsvarende verdier hos RDA-gruppen. Maksverdien i kontrollgruppen er lavere enn øvre kvartil i RDA gruppen. Det betyr at mer enn 25 % i RDA gruppen skårer dårligere på funksjon enn kontrollgruppen. Hos RDA-gruppen er boksen bredere som betyr at skårene på funksjon er mer spredt enn hos kontroll gruppen. BoksploTTet viser mange flere uteliggere og ekstremverdier retning dårligere funksjon i kontrollgruppen.



Figur 3. Funksjon i arm, skulder og hånd hos RDA-gruppen og den norske generelle befolkningen målt ved KvikkDASH (0-100; 0= ingen vansker, 100=umulig å gjøre, ekstremt)

Tabell 2 viser at det er en statistisk signifikant forskjell i funksjonsnivå mellom de to gruppene, men med en liten effekt størrelse. Ut av tabellen kan vi se en større effektforskjell for kvinner, men fortsatt en liten effektstørrelse. De eldste og yngste i RDA-gruppen rapporterte statistisk signifikant dårligere funksjon med henholdsvis stor og medium effektstørrelse sammenliknet med aldersgruppene i kontroll gruppene.

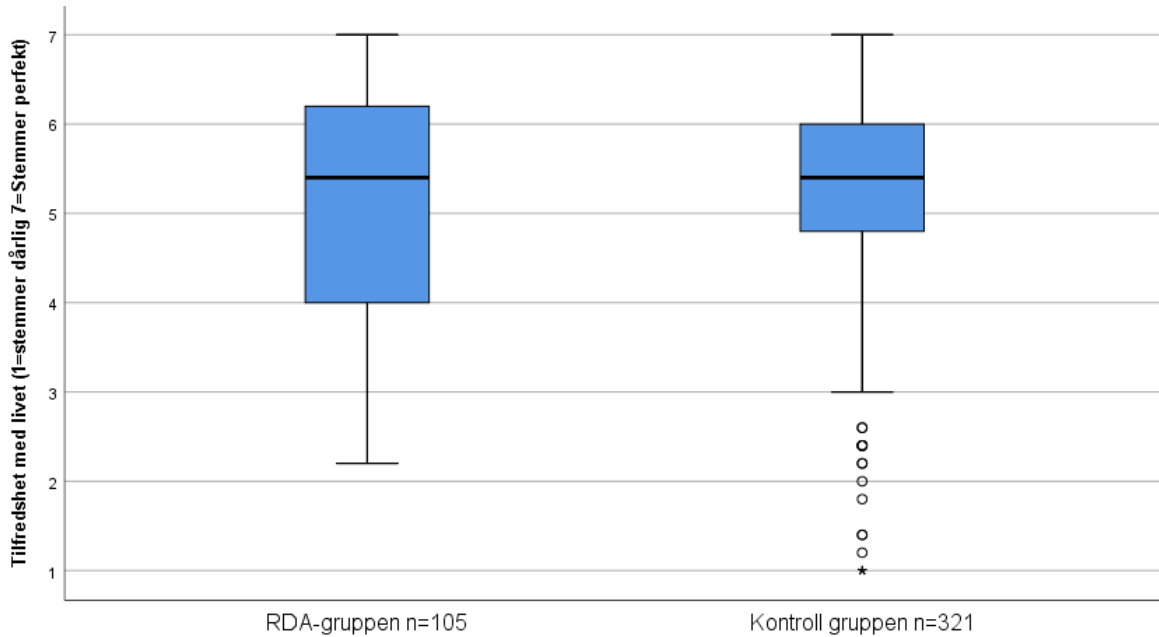
Tabell 2. Funksjon i arm, skulder og hånd hos RDA-gruppen og kontroll gruppen, fordelt på kjønn og i tre aldersgrupper.

	RDA-gruppen n=107	Kontroll-gruppen n=341	P (RDA vs. kontroller) MWU-test	P (RDA vs. kontroller) KW-test	Effekt (Cohen's d)
Respon- variabel	Median (Q1, Q3)	Median (Q1, Q3)			
KvikkDASH (0-100)	12,5 (4,5, 25)	2,3 (0, 9)	<0,001		r=-0,36
Kvinner	20,45 (n=56)	4,5 (n=170)	<0,001		r=-0,42
Menn	9,09 (n=51)	2,2 (n=161)	<0,001		r=-0,32
3 aldersgrupper:				0,015	
18-30 år	11,4 (n=70)	0,0 (n=62)	<0,001		r=-0,51
31-50 år	11,9 (n=24)	2,3 (n=125)	<0,001		r=-0,39
51-74 år	27,3 (n=13)	4,5 (n=143)	<0,001		r=-0,97

RDA: reduksjonsdefekt i armene; KvikkDASH: Dysfunksjon i arm, skulder og hånd (0-100) der 0=høy funksjon, 100=Lav funksjon. MWU: Mann-Whitney U Test. KW: Kruskal-Wallis Test. Cohen's d: (Cohen's criteria 1988) 0,20=liten effekt, 0,50=medium effekt og 0,80=stor effekt.

4.1.2 Tilfredshet med livet.

Figur 4 viser spredningsmålene for tilfredshet med livet i RDA-gruppen og kontrollgruppen. Tre fjerdedeler i begge gruppene skårer gjennomsnittlig eller høyere på fornøydhetsnivået. Boksen er bredere hos RDA-gruppen, det vil si at skårene er mer spredt og de har det laveste endepunktet i forhold til kontrollgruppen. Kontrollene har imidlertid mange uteliggere ekstremverdier lavere enn det laveste endepunktet til RDA-gruppen.



Figur 4. Tilfredshet med livet hos RDA-gruppen og den norske generelle befolkningen (kontroll gruppen), målt ved sumskår av SWLS. Tolkning av skalaen: (6-7) Veldig høy poengsum; svært fornøyd, (5-6) Høy poengsum, (4-5) Gjennomsnittlig poengsum, (3-4) Litt under gjennomsnittet i livstilfredshet, (2-3) Misfornøyd, (2-1) Svært misfornøyd.

Tabell 3 viser at det ikke er statistisk signifikant forskjell mellom RDA-gruppen og kontrollgruppen når det gjelder tilfredshet med livet. Det er heller ingen signifikant forskjell med hensyn til kjønn eller alder.

Tabell 3 Tilfredshet med livet hos RDA-gruppen og kontroll gruppen, fordelt på kjønn og i tre aldersgrupper.

	RDA-gruppen n=107	Kontroll gruppen n=341	P (RDA vs. kontroller) MWU-test	P (RDA vs. kontroller) KW-test	Effekt (Cohen's d)
Respons- variabel	Median (Q1, Q3)	Median (Q1, Q3)			
SWLS (1-7)	5, 4 (4, 6, 2)	5, 4 (4,8, 6)	0,974		-
Kvinner	5,4 (n=56)	5,4 (n=161)	0,441		-
Menn	5,6 (n=49)	5,4 (n=159)	0,344		-
3 aldersgrupper:				0,441	
18-30 år	5,4 (n=68)	5,3 (n=62)	0,388		-
31-50 år	5,6 (n=24)	5,4 (n=126)	0,579		-
51-74 år	4,0 (n=13)	5,6 (n=133)	0,100		-

RDA: reduksjonsdefekt i armene; SWLS: Tilfredshet med livet skala (1-7, 1=stemmer dårlig, 7= stemmer perfekt); MWU: Mann-Whitney U test. KW: Kruskal-Wallis Test. Cohen's d: Cohen's criteria1988: 0,20=liten effekt, 0,50=medium effekt og 0,80=stor effekt.

4.1.3 Generell helse

Figur 5a-5e viser prosentandel selvvardert generell helse i RDA-gruppen og kontroll gruppen for de fem helsesrelaterte kategoriene; mobilitet, egenomsorg, vanlige aktiviteter, smerter/ubehag, angst/depresjon i fem nivåer. RDA-gruppen og kontroll gruppen vurderer sin generelle helse likt eller ganske i de fleste kategoriene.

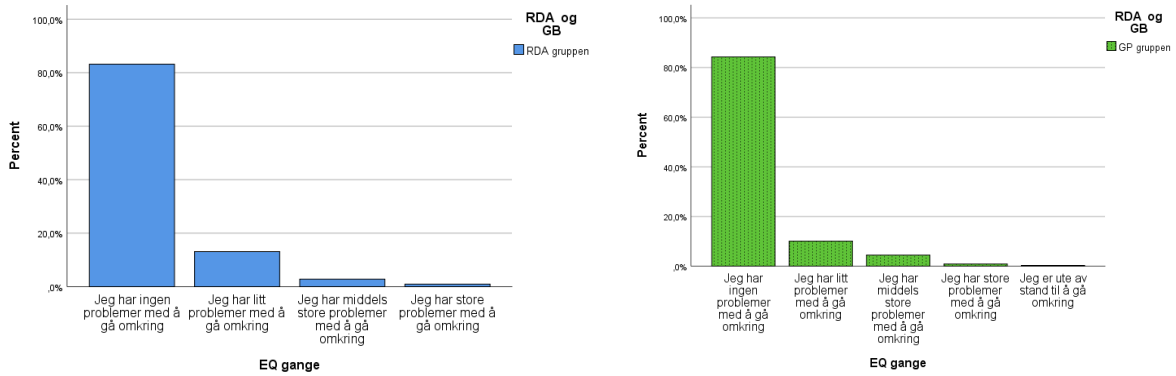
RDA-gruppen og kontrollgruppen skårer likt på mobilitet (figur 5a). De fleste har ingen problemer med å gå omkring, noen oppgir litt problemer og noen få oppgir middels til store problemer med å gå omkring.

Personlig stell går uten problemer for det store flertallet i begge gruppene (figur 5b).

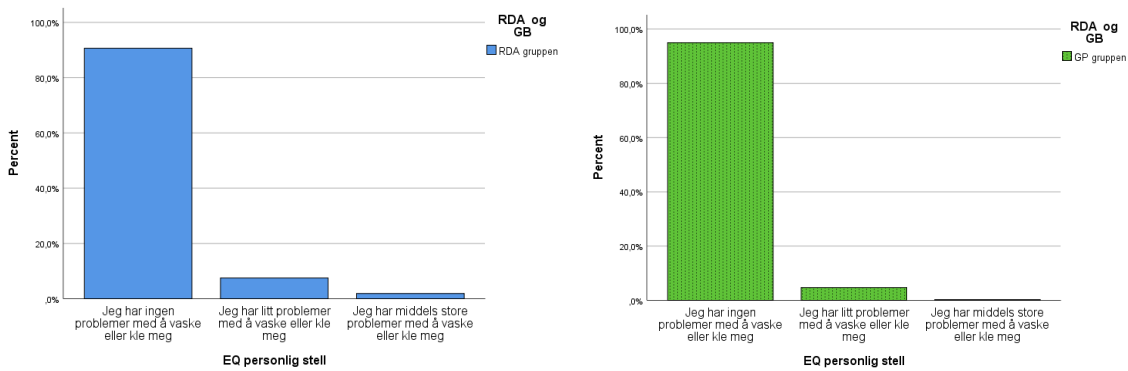
Vanlige gjøremål er kategorien som skiller RDA-gruppen mest fra kontrollgruppen (figur 5c). De fleste i RDA-gruppen skårer dog relativt høyt det vil si ingen problemer med å utføre vanlige gjøremål, men en større prosentandel med RDA oppgir litt problemer eller middels store til store problemer med å utføre vanlige aktiviteter sett i forhold til kontrollgruppen.

Smerter og ubehag er vanlig forekommende i det store flertallet hos begge gruppene (figur 5d) og er den kategorien flertallet i begge gruppene skårer dårligst på av de fem, lavest i RDA-gruppen. Mange har litt smerter og ubehag, ca. 10 % har middels store smerter.

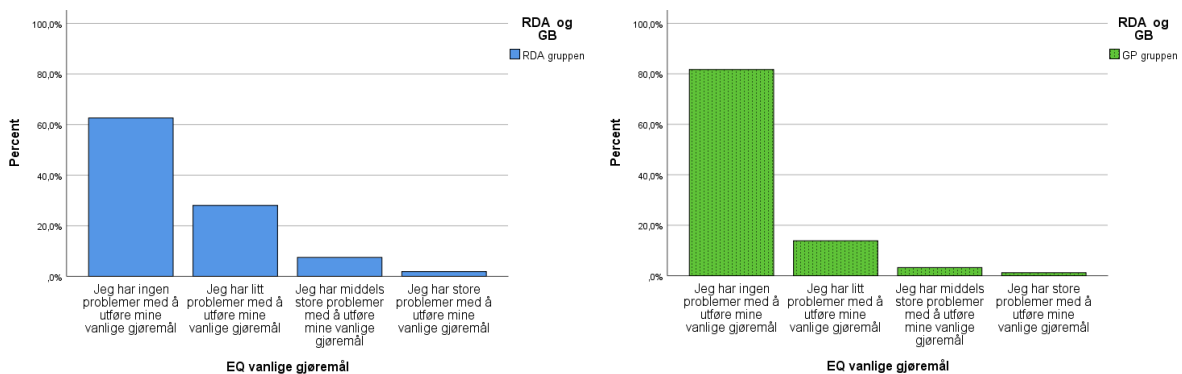
Litt angst og depresjon er relativt vanlig i under halvparten i begge gruppene (figur 5e), og hyppigst forekommende i RDA-gruppen.



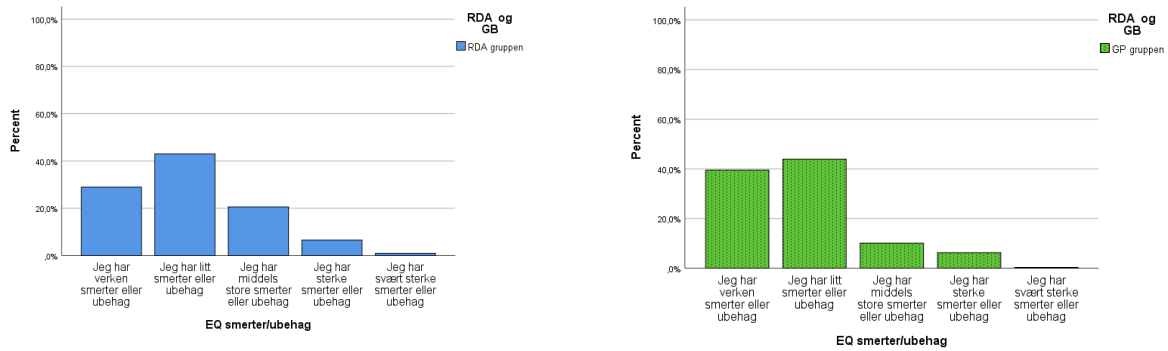
Figur 5a. Mobilitet (EQ 5D) hos RDA-gruppen (n=107) og kontrollgruppen (GP gruppen) (n=337) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.



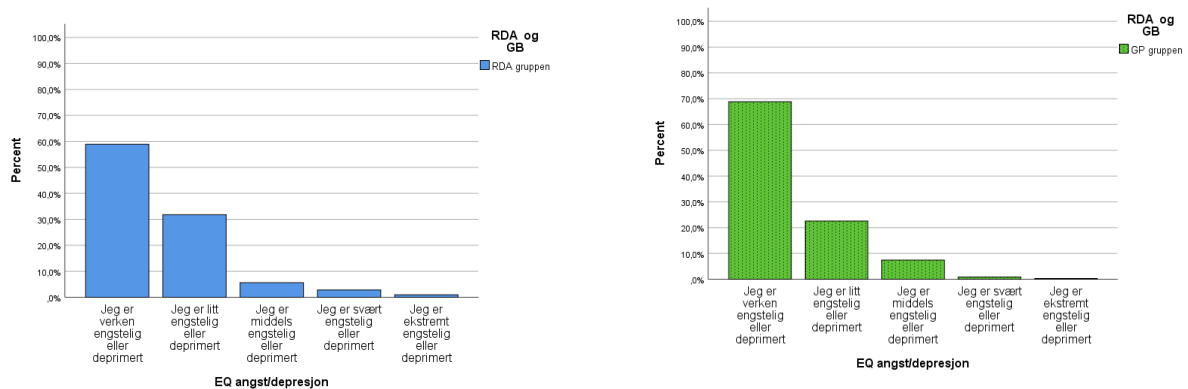
Figur 5b. Personlig stell (EQ 5D) hos RDA-gruppen (n=107) og kontrollgruppen (GP gruppen) (n=339) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.



Figur 5c. Vanlige gjøremål (EQ 5D) hos RDA-gruppen (n=107) og kontrollgruppen (GP gruppen) (n=339) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.



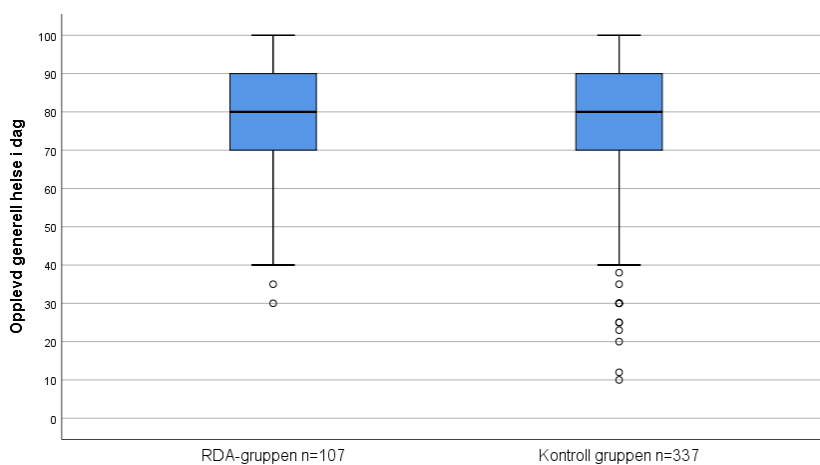
Figur 5d. Smerter/ubehag (EQ 5D) hos RDA-gruppen (n=107) og kontrollgruppen (GP gruppen) (n=337) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.



Figur 5e. Angst/depresjon (EQ 5D) hos RDA-gruppen (n=107) og kontrollgruppen (GP gruppen) (n=337) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.

Opplevd helse idag

Figur 6 viser opplevd generell helse for RDA-gruppen og kontrollgruppen og illustrerer at begge gruppene skårer høyt med nesten identisk spredning.



Figur 6. Opplevd generell helse i dag hos RDA-gruppen og den norske generelle befolkningen (kontroll gruppen) målt ved visuell analog skala (EQ VAS) som er gradert fra 0-100 hvor 0 utgjør «den verste helsen du kan forestille deg» og 100 utgjør «den beste helsen du kan forestille deg».

Tabell 4 viser ingen signifikante forskjeller mellom RDA-gruppen og kontroll gruppen. Kvinnene i RDA-gruppen skårer signifikant lavere på opplevd generell helse i dag enn kvinnene i kontrollgruppen, men med en svært liten effektsstørrelse. Det er ingen signifikante forskjeller i opplevd helse med hensyn til alder i tre ulike aldersgrupper.

Tabell 4. Opplevd generell helse i dag hos RDA-gruppen og kontroll-gruppen, fordelt på kjønn og i tre aldersgrupper

	RDA-gruppen n=107	Kontroll-gruppen n=341	P (RDA vs. kontroller) MWU-test	P (RDA vs. kontroller) KW-test	Effekt (Cohen's d)
Respons- variabel	Median (Q1, Q3)	Median (Q1, Q3)			
Generell helse (VAS)	80 (70, 90)	80 (70, 90)	0,242		-
Kvinner	75 (n=56)	80 (n=171)	0,048		r=-0,13
Menn	80 (n=51)	80 (n=165)	0,720		-
3 aldersgrupper:				0,458	
18-30 år	80 (n=70)	80 (n=63)	0,536		-
31-50 år	78 (n=24)	80 (n=128)	0,301		-
51-74 år	70 (n=13)	80 (n=145)	0,054		-

RDA: reduksjonsdefekt i armene; VAS: Visuell analog skala fra 0-100 som brukes som kvantitativt mål på helse relatert livskvalitet, MWU: Mann-Whitney U test. KW: Kruskal-Wallis Test. Cohen's d: Cohen's criteria 1988: 0,20=liten effekt, 0,50=medium effekt og 0,80=stor effekt.

4.2 Bruk av armprotese

Tabell 5 viser en oversikt over tilpasning og bruk av armprotese, årsak til bruk, type proteser i bruk og årsak til sluttbruk av armproteser for alle som har fått tilpasset protese i RDA-gruppen.

Tabell 5 Oversikt over tilpasning av protese og bruk av protese i RDA-gruppen

Responsvariabler	Reduksjonsdefekt i arm fordelt på ICD-10 diagnosekoder			
	Alle Q71.x	Q71.2	Q71.3	Q71.4-8
	N=107	n=25	n=48	n=34
Har fått tilpasset protese, ja	49 (46)	25 (100)	18 (38)	6 (18)
Bruker protese i dag?	N=49	n=25	n=18	n=6
Ja	24 (49)	13 (52)	8 (44)	3 (50)
Nei	25 (51)	12 (48)	10 (56)	3 (50)
Alder ved protesetilpasning	4 (1, 7)	1 (.5, 3)	5 (5, 7)	-
Alder ved sluttbruk av protese	12 (10, 17)	11 (10, 12))	13 (11, 18)	-
Hvor ofte brukes protese	N=24	n=13	n=8	n=3
Daglig >8t	7 (29)	6 (46)	1 (13)	0 (0)
Daglig 5-8t	3 (13)	3 (23)	0 (0)	0 (0)
Daglig ≤4t	1 (4)	1 (8)	0 (0)	0 (0)
Ukentlig 1-6 ganger	9 (38)	2 (15)	4 (50)	3 (100)
Månedlig 1-4 ganger	3 (13)	1 (8)	2 (25)	0 (0)
Sjelden	1 (4)	0 (0)	1 (13)	0 (0)
¹ Protesetype				
Kosmetisk	14 (58)	6 (46)	6 (75)	2 (67)
Myoelektrisk	8 (33)	6 (46)	1 (13)	1 (33)
Mekanisk	6 (25)	1 (8)	4 (50)	1 (33)
Årsak til protesebruk				
Utseende	4 (17)	4 (31)	0 (0)	-
Både utseende og støtte	3 (13)	3 (23)	0 (0)	-
Bedre funksjon/ Støtte/ Grep/ Avlastning	14 (58)	3 (23)	8 (100)	3 (100)
Vane	1 (4)	1 (8)	0 (0)	-
Ukjent	2 (8)	2 (15)	0 (0)	-

NOTE. Kategoriske variabler oppgis med frekvenser og kontinuerlige variabler oppgis med median, nedre og øvre kvartil. Manglende verdier oversteg ikke 2 % for noen av variablene med unntak av variablene alder for protesetilpasning og alder for proteseslutt (4 % missing data). ¹)Tallene summerer seg til mer enn totalen, dette skyldes at et individ kan bruke flere protesetyper.

Forkortelser: RDA, reduksjonsdefekt i armene, ICD-10, Den internasjonale statistiske klassifikasjonen av sykdommer og beslektede helseproblemer 10. revisjon.

Q71.0 Medfødt fullstendig mangel på overekstremitet

Q71.2 Medfødt mangel på både underarm og hånd

Q71.3 Medfødt mangel på hånd og fingre

Q71.4 Longitudinal reduksjonsdefekt i radius

Q71.5 Longitudinal reduksjonsdefekt i ulna

Q71.6 Spaltehånd

Q71.8 Andre spesifiserte reduksjonsdefekter i overekstremitet (er)

Q71.9 Uspesifisert reduksjonsdefekt i overekstremitet

Q71.x= Alle

Armprotese var tilpasset hos 49 pasienter (46 %) i RDA-gruppen. Q71.2 gruppen utgjorde 51 % av disse, Q71.3 37 % og 12 % hadde andre Q71 diagnosekoder

Litt over halvparten av samtlige som hadde fått tilpasset protese rapporterte at de hadde sluttet å bruke protese ved tolv års alder.

Individene med diagnosekode Q71.2 representerer den mest homogene gruppen i utvalget. De aller fleste med denne diagnosekoden er som regel i utgangspunktet godt egnet for tilpasning av protese både med tanke på fysikk og potensielt nytteverdi av et slikt hjelpemiddel. Q71.2 gruppen trekkes derfor ut for å studere forskjeller mellom protesebrukere og ikke-protesebrukere. Alle har unilateral reduksjonsdefekt på høyre eller venstre side og alle har på et tidspunkt fått tilpasset protese. Gruppen med protesebrukere og ikke-protesebrukere utgjør henholdsvis 13 og 12 individer.

Bruker protese

Armprotese var tilpasset til alle i Q71.2 gruppen ved ett års alder og av disse bruker 52 % fortsatt protese i dag; derav fem menn og syv kvinner. De fleste bruker den daglig (n=10, 77 %). To bruker den ukentlig og en bruker sin protese månedlig. De mest rapporterte protesetyperne i utvalget var kosmetisk protese og myoelektrisk protese.

Årsaken til protesebruk i Q71.2 gruppen er i 31 % av tilfellene å normalisere utseendet og for å slippe spørsmål, i 23 % av tilfellene er det en kombinasjon av både å normalisere utseende og gi støttefunksjon, i 23 % av tilfellene handler det om å oppnå bedre funksjon (inkludert bedret grep, støtte og avlastning) og i 23 % av tilfellene oppgis gammel vane eller ingen årsak til hvorfor protese brukes.

Bruker ikke protese

Litt under halvparten av alle som hadde fått tilpasset protese i Q71.2 gruppen rapporterte at de hadde sluttet å bruke den ved elleve års alder. En person fikk tilpasset protese sent i livet sluttet å bruke den 4 år senere ved 52 års alder.

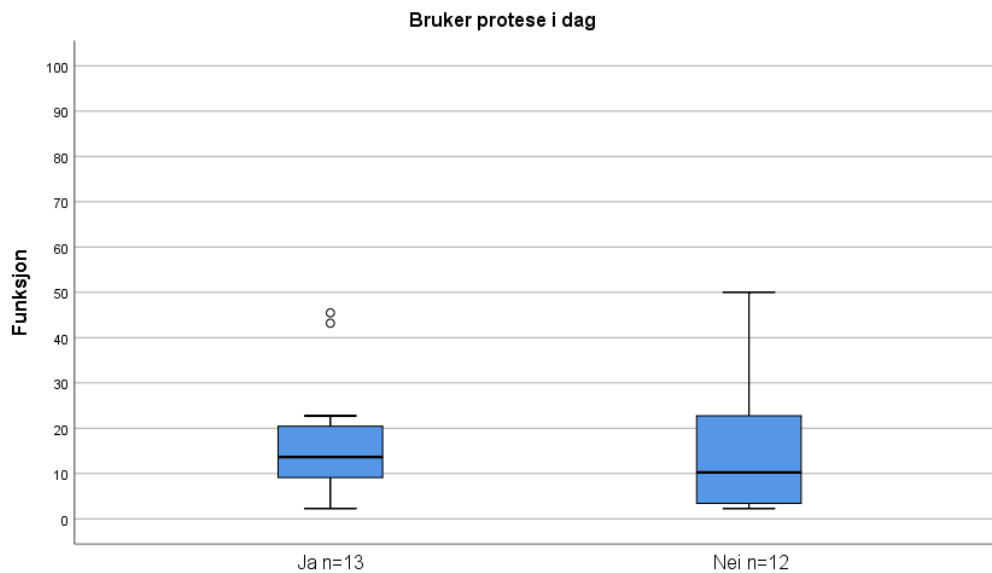
Årsaken til at protesebrukerne sluttet å bruke protese var at de klarte seg bedre uten, livssituasjonen endret seg (fikk barn eller «tenåra slo inn»), protesen var tung å bære, ubehagelig, upraktisk, liten praktisk funksjon, lite nyttig og i veien. Hverdagen ble enklere uten protese. Noen rapporterte at protesen var «mer en plage enn til hjelp» eller at de «hatet» den.

4.2.1 Funksjon og livskvalitet hos brukere versus ikke-brukere av armprotese

Skårene for tilfredshet med livet, generell helserelatert livskvalitet og funksjon i arm, skulder og hånd er skjevfordelte og majoriteten skårer i den ene enden av skalaen der vi finner god funksjon, høy tilfredshet med livet og god helse i dag i begge gruppene.

Funksjon

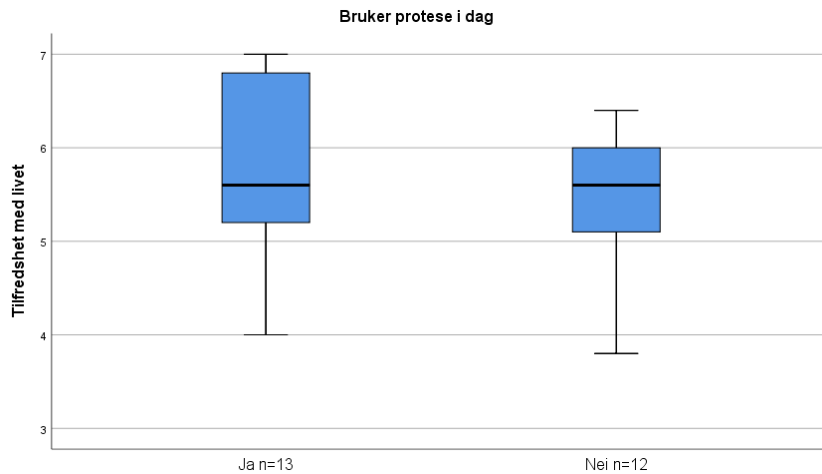
Boksplottet (Figur 7) viser at protesebrukere rapporterer noe bedre funksjon i arm, skulder og hånd enn de som ikke bruker armprotese. Hos ikke-protesebrukerne er spredningen større, noe som tyder på at enkelte av ikke-brukerne opplever dårligere funksjon enn de i protesegruppen.



Figur 7. Funksjon i skulder, arm og hånd i Q71.2-gruppen målt med KvikkDASH, fordelt på de som bruker protese og de som ikke bruker protese i dag. 0=ingen vanskeligheter, 100=umulig å gjøre).

Tilfredshet med livet

Figur 8 viser tilfredshet med livet hos de som bruker armprotese og de som ikke bruker armprotese. Tilfredsheten er høy eller svært høy hos ca. 75 % av begge gruppene, noen flere i protesegruppen rapporterer at de er svært fornøyd med livet.

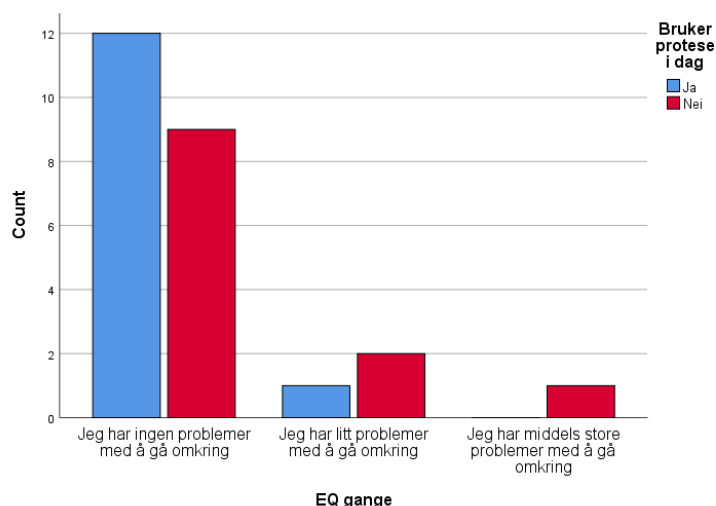


Figur 8. Tilfredshet med livet i Q71.2-gruppen hos de som bruker protese og de som ikke bruker protese i dag. Tolkning av skalaen: (6-7) Veldig høy poengsum; svært fornøyd, (5-6) Høy poengsum, (4-5) Gjennomsnittlig poengsum, (3-4) Litt under gjennomsnittet i livstilfredshet, (2-3) Misfornøyd, (2-1) Svært misfornøyd.

Generell helse

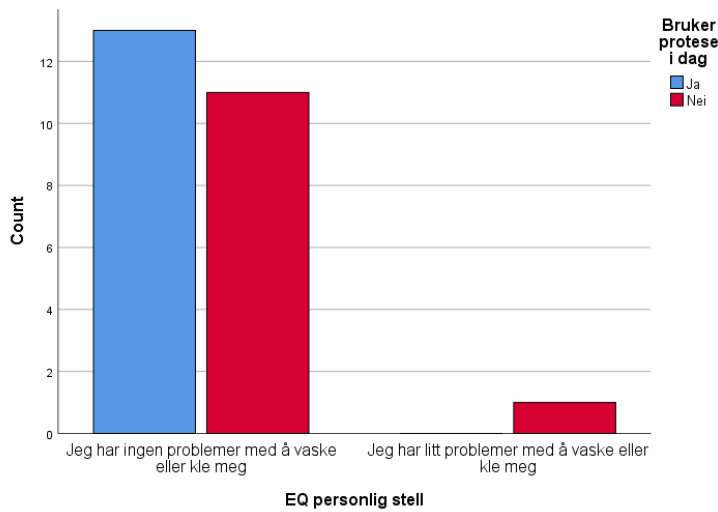
Figurene 9-13 viser generell helse, som inkluderer fem helserelaterte dimensjoner; mobilitet, egenomsorg, vanlige aktiviteter, smerter/ubehag, angst/depresjon hos de som bruker protese (n= 13) og de som ikke bruker protese (n=12).

De aller fleste i begge gruppene rapporterer ingen problemer på mobilitet (figur 9), men tendensen er at de som ikke bruker protese oppgir større problemer.



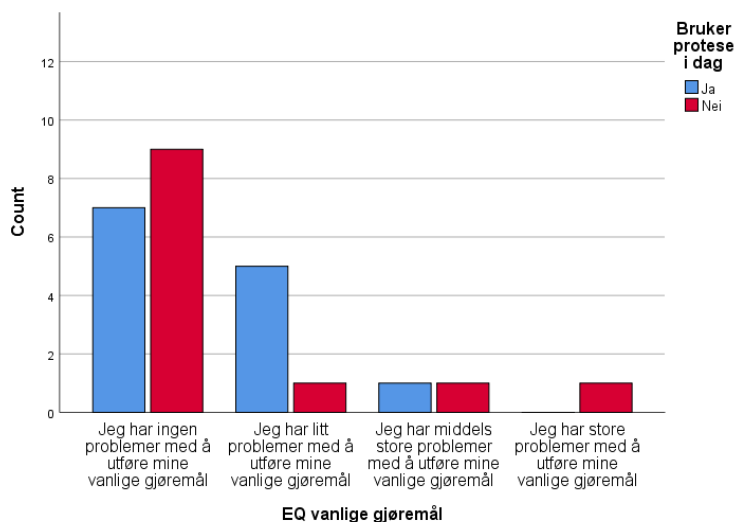
Figur 9. Mobilitet (EQ 5D) hos protesebrukere (n=13) og ikke-protesebrukere (n=12) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.

Egenomsorg utføres uten problemer av alle i protesegruppen og av de aller fleste i ikke-protesegruppen (figur 10).



Figur 10. Egenomsorg (EQ 5D) hos protesebrukere (n=13) og ikke-protesebrukere (n=12) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer. hos protesebrukere og ikke-protesebrukere.

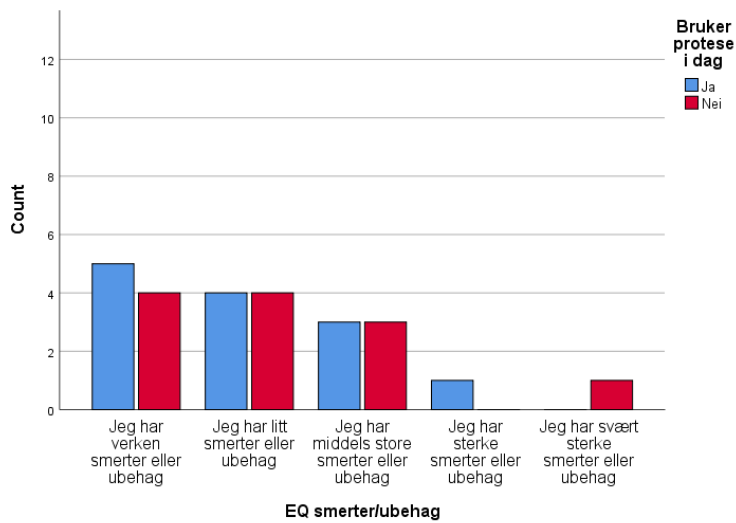
I kategorien «vanlige gjøremål» (figur 11) rapporterer flere i begge gruppene problemer, men det er noen flere blant dem som ikke bruker protese som gjennomfører vanlige aktiviteter uten vansker.



Figur 11. Vanlige gjøremål (EQ 5D) hos (n=13) og ikke-protesebrukere (n=12) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.

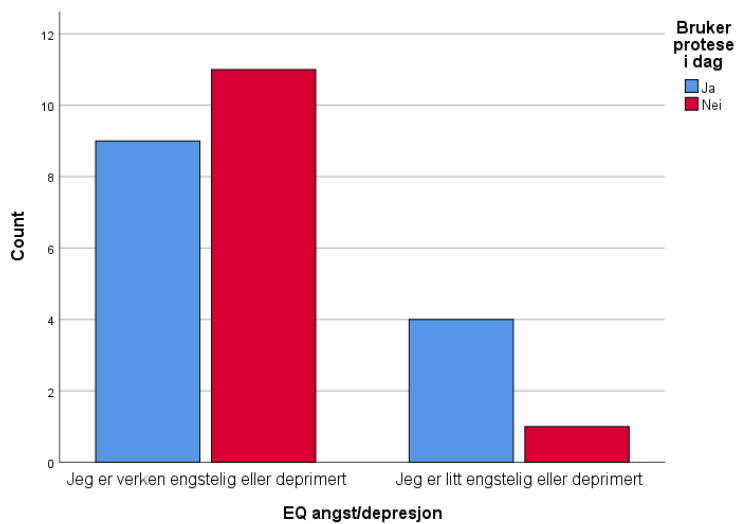
Smerteforekomsten synes ganske lik i gruppene. Figur 12 viser at det i over halvparten i begge gruppene rapporteres en god del smerte og ubehag. Like mange i begge grupper har litt

eller middels store smerter, mens noen få oppgir sterke smerter (protesebruker) og svært sterke smerter (ikke-protesebruker).



Figur 12. Smerter /ubehag (EQ 5D) i protesebrukere (n=13) og ikke-protesebrukere (n=12) målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.

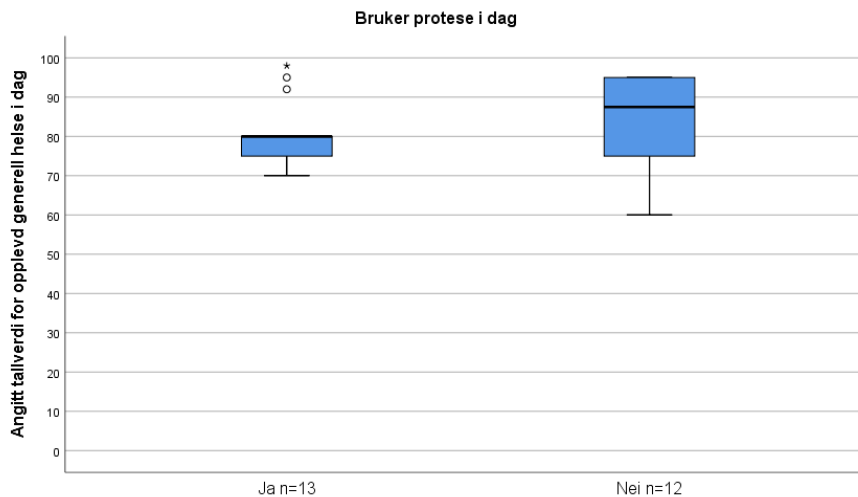
Figur 13 viser at flere protesebrukerne oppgir at de har litt angst eller er deprimert enn de som ikke brukere protese.



Figur 13. Angst/depresjon (EQ 5D) i RDA-gruppen og kontroll gruppen målt i to av fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.

Opplevd helse i dag

Figur 14 viser opplevd generell helse i dag hos protesebrukerne og ikke-protesebrukere. Langt over halvparten av de som ikke bruker protese opplever en bedre opplevd helse enn protesebrukerne.



Figur 14. Opplevd generell helse (VAS: 0-100) i Q71.2-gruppen hos de som bruker protese og de som ikke bruker protese i dag. Tolkning av skalaen: 0=verst tenkelige helse, 100=best tenkelige helse.

Tabell 6 viser ingen statistisk signifikante forskjeller mellom protesegruppen og ikke-protesegruppen verken på funksjon, tilfredshet med livet eller generell helse. Gruppene er for små og sammenlikning av protesebruk og ikke-protesebruk fører det til redusert statistisk styrke når det gjelder forskjeller mellom gruppene.

Tabell 6. Deskriptiv statistikk og oppsummering av statistiske tester for variablene tilfredshet med livet, helserelatert livskvalitet og funksjon for protesebrukere og ikke-protesebrukere i Q71.2 gruppen.

	Protese n=13	Ikke-protese n=12	<i>p</i> (protese vs. ikke-protese)
Responsvariabler	Median (Q1,Q3)	Median Q1,Q3	MWU-test
SWLS	5.6 (5,2, 6,9)	5.6 (5,0, 6,0)	,413
Generell helse	80 (75, 86)	87.5 (72.5, 95,0)	,439
KvikkDASH	13.6(6,8, 21,6)	10.2 (2.8, 26,1)	,565

5 Diskusjon

Hovedfunn

RDA-gruppen hadde en relativt god selvrapportert funksjon i arm, skulder og hånd, men statistisk signifikant mer dysfunksjon enn den generelle befolkningen og kvinnene skårer dårligst.

Begge gruppene skårte høyt på tilfredshet med livet og opplevd helse og det var ingen signifikant forskjell i livskvalitet mellom RDA-gruppen og den generelle befolkningen.

Det var ingen signifikant forskjell i funksjon i arm, skulder og hånd, tilfredshet med livet eller «opplevd helse i dag» mellom protesebrukere og ikke-protesebrukere, men antallet i gruppene var små noe som minsker styrken til å oppdage statistisk signifikante forskjeller.

RDA-gruppen var signifikant yngre enn utvalget fra den generelle befolkningen, men det ser ikke ut til å ha hatt innvirkning på den statistiske signifikansen av resultatene.

Signifikans

Respondentene i vår studie er relativt unge sammenliknet med kontrollgruppen. I et eldre befolkningsutvalg av personer med RDA vil vi forvente dårligere funksjon og mer plager. For å sjekke hvorvidt den signifikante aldersforskjellen mellom utvalgene hadde betydning for resultatene våre delte vi RDA-gruppen og kontroll gruppen i tre aldersgrupper (tabell 1). Den yngste gruppen (18-30 år) var nesten like stor i begge utvalgene. Vi fant, ved å bruke ikke-parametriske tester, en Kruskal-Wallis Test for å teste om det var forskjeller mellom gruppene og Mann Whitney test for å teste hvilke grupper som var statistisk signifikant forskjellige. Vi fant signifikant forskjell på funksjon også i den yngste gruppen (tabell 2), og kan derfor være trygg på at resultatene i vår analyse er valide til tross for den signifikante aldersforskjellen i RDA-gruppen og kontroll gruppen.

Funksjon i arm, skulder og hånd

Resultatene våre viste en signifikant større dysfunksjon i arm, skulder og hånd hos RDA-gruppen (median 12,5) sammenliknet med den generelle befolkningen (median 2,3), men med en liten effektstørrelse (tabell 2).

Muskelskjelettplager og dysfunksjon i RDA gruppen er rapportert i flere studier (Burger & Vidmar, 2016; Johansen et al., 2015; S. G. Postema et al., 2016; S. G. Postema et al., 2012). Disse forskerne fant at dysfunksjon knyttet til muskelskjelettproblemer var vanlige hos personer med RDA, øker med alderen og sannsynligvis skyldes «overbruk» av den uaffiserte armen.

Våre signifikante resultater med hensyn til funksjon sammenfaller med funn som Postema og kollegaer (2012) gjorde i en prospektiv kohort studie med en oppfølgingsperiode på 24 år matchet med funksjonsfriske kontroller (S. G. Postema et al., 2012). Pasientene rapporterte signifikant mer dysfunksjon på KvikkDASH skalaen sammenliknet med kontrollene (gjennomsnitt $10.46 \pm 11,8$ versus $2.06 \pm 3,3$).

Johansen og kollegaer (2015) fant i en deskriptiv studie på voksne personer med medfødte misdannelser (arm/ben), der 79 % hadde RDA og flesteparten var kvinner, at personer med medfødte misdannelser i ekstremitetene hadde økt risiko for smerte på begge sider av kroppen og større forekomst av tidlig pensjonering som antatt følge av nedsatt funksjon (Johansen et al., 2015).

Burger og Vidmar (2016) fant videre at personer med unilateral mangel på arm (medfødt eller ervervet) hadde økt risiko for å utvikle problemer knyttet til overbruk av den uaffiserte armen (carpal tunnel syndrome vanligst, deretter skulder, nakke og albue smerter), men kunne ikke påvise enkle sammenhenger mellom omfanget av overbruksproblemer og amputasjonsnivå, årsak til mangelen, eller protesebruk (hyppighet, protesetype, aktiviteter) (Burger & Vidmar, 2016). Hvilke faktorer som hadde betydning for utviklingen av plager kunne ikke stadfestes.

I en nederlandsk spørreskjemaundersøkelse viste Postema og kollegaer (2016) at dysfunksjon knyttet til muskelskjelettproblemer var vanlig hos personer med RDA og assosiert med nedsatt generell og mental helse (S. G. Postema et al., 2016). Forekomsten av muskelskjelettplager var dobbelt så stor i RDA-gruppen sammenliknet med gruppen som ikke hadde mangler i armene (ibid). Lokalisasjon av smerter og plager er foreløpig ikke analysert i vår studie da det er utenfor rammen av denne masteroppgaven.

Protesebruk og funksjon

I vår studie hadde alle individene med «medfødt mangel på både underarm og hånd» (Q71.2) fått tilpasset protese. Resultatene våre indikerer at til tross for nedsatt funksjon så stoppet litt

under halvparten av respondentene i utvalget som hadde fått tilpasset protese å bruke protesens sin tidlig (tabell 5). Vi fant at 48 % av respondentene stoppet å bruke protesens sin ved elleve års alder.

Dette samsvarer bra med en litteraturgjennomgang om armprotesebruk over en periode på 25 år der Biddis og Chau observerte at gjennomsnittlig 45 % og 35 % av barna valgte bort henholdsvis mekanisk eller myoelektrisk protese, tilsvarende for den voksne befolkningen var 26 % og 23 % (Biddiss & Chau, 2007).

Våre funn passer også med funn Johansen og kollegaer gjorde i tverrsnittsstudien i 2015 (Johansen et al., 2015). Forskerne fant at de fleste som valgte å bruke protese hadde transverselle defekter i armene og at en god del (25 %) ikke brukte protese. De fant også at godt over halvparten av de som sluttet å bruke protesens sluttet å bruke den på grunn av ubehag og at protesens hindret funksjon (Johansen et al., 2015).

I vår studie var det enda flere som sluttet å bruke protesens sin (48 %). Årsaken til at respondentene sluttet med protese i vår studie var sammenfallende; i hovedsak at de klarte seg bedre uten, livssituasjonen endret seg, protesens var tung, ubehagelig, upraktisk, lite nyttig og i veien. Noen rapporterte at protesens var «mer en plage enn til hjelp» eller at de «hatet» den.

Det kan kanskje delvis forstås i lys av studien som Reinkingh og kollegaer publiserte i 2012 som viste at stumpsensibiliteten til barn med reduksjonsdefekt i armene er svært god (Reinkingh et al., 2014). Det å sette en protese på en stump betyr at man hindrer personen tilgang til den følsomme og funksjonelle stumpen og tillegger dessuten kroppen ekstra vekt/tyngde (ibid). En arm med reduksjonsdefekt har ikke samme muskelmasse som en normal arm og den endrede balansen/tyngden som en protese uvilkaarlig vil ha på kroppen vil påvirke øvrig muskulatur og kan på sikt også tenkes å påføre utilsiktede belastningsplager i tillegg til den psykiske påkjenningen det er å følge opp protesetreningen på en disiplinert og strukturert måte.

Funnene med hensyn til protesebruk i vår studie skiller seg fra det Sjøberg og kollegaer fant i 2014 (Sjøberg et al., 2014); der brukte flestparten protese. Det kan som antydning av Johansen (2015) skyldes ulike holdninger blant fagfolk med hensyn til nytteverdi av protesebruk og oppfølgingsrutiner ved foreskriving av en protese (Johansen et al., 2015). Det kan kanskje også tenkes at pasientene/foreldrene føler press fra behandlerne om å prøve ut protesebruk.

Resultatene i vår studie viste at det var større spredning av funksjon både i retning god og dårlig funksjon blant de som ikke brukte protese (figur 7), men vi kunne ikke påvise signifikante forskjeller i funksjon mellom de som brukte protese og de som ikke brukte protese (tabell 6). Gruppene var for små til å gi nok statistisk styrke til å oppdage statistisk signifikante forskjeller.

Postema og kollegaer (2012) fant heller ingen signifikant forskjell i funksjon når de sammenliknet protesebrukere som brukte protesen åtte timer daglig og de som brukte proteser sjeldnere enn det (S. G. Postema et al., 2012). Alle pasientene hadde fått tilpasset protese tidlig i livet og bruk av protese varierte i løpet av livet og gruppene var små (ibid).

Det har vært antatt som en hypotese at protesebruk, gjennom å muliggjøre symmetrisk funksjon av kroppen, kan minske smerteplager. Johansen og kollegaer som undersøkte protesebruk med hensyn smerte fant heller ingen forskjell mellom personer som brukte protese og personer som ikke brukte protese (Johansen et al., 2015). Forskerne diskuterte muligheten for at bruk av en tung protese kan hindre funksjonelle og automatiserte bevegelser og forårsake smerte (ibid).

Personer med RDA bruker i utgangspunktet kroppen slik den naturlig er og de finner effektive og naturlige måter å utføre sine aktiviteter på. En armprotese vil generelt kunne forbedre funksjonen gjennom å forlenge armen, men dersom personen fungerer bedre eller like bra uten proteser vil avvisningen av en protese være høy (McLaughlin et al., 2013).

Denne kjensgjerningen kan kanskje av noen fagfolk oppfattes som et behandlingsmessig nederlag, men i følge McLaughlin og kollegaer reflekterer det en mer hensiktsmessig funksjon for pasienten (McLaughlin et al., 2013). Ofte vil vi som helsepersonell gjerne bidra med å «normalisere» situasjonen. Vi kommer med normaliseringstiltak og vi vil i den grad vi kan bidra hindre at pasienten får (flere) problemer. Behandlingsstrategien til fagfolk kan derfor bære preg av pasientens begrensninger, mer enn mulighetene personen i utgangspunktet har. En ensidig vektlegging av det medisinske avviket kan i følge forsker Lars Grue føre til et begrensende perspektiv av forståelsen av hvilke forhold som gjør nedsatt funksjonsevne til et avvik (Grue, 2016). Ubevisste holdninger om hva er normalt kan være med på å legge sten til byrden hos personer som har et annet kroppslig utgangspunkt enn flertallet, eller rett og slett lage en byrde som i utgangspunktet ikke var der.

Livskvalitet

Funnene i vår studie indikerer høy grad av tilfredshet med livet (figur 4) og opplevd generell helse (figur 6) både i RDA-gruppen og den generelle befolkningen. Disse funnene er i samsvar med det som rapporteres i Levekårsundersøkelsen i 2015, der 79 % vurderer sine helseforhold som svært gode eller gode (Statistisk sentralbyrå, 2018). Det var ingen statistisk signifikant forskjell i vår studie mellom RDA-gruppen og kontroll gruppen verken med hensyn til tilfredshet med livet (tabell 3) eller opplevd helse (tabell 4), men tabell 4 viser at i vårt tallmateriale skåret kvinnene signifikant lavere enn kontrollgruppens kvinner på opplevd helse i dag, dog med en liten effektstørrelse.

De gode resultatene i vår studie samsvarer også med funnene som Sjöberg og kollegaer gjorde på voksne med RDA der majoriteten av personer med RDA rapporterte god eller veldig god helse og at mange deltagere var optimistiske med hensyn til fremtiden (Sjöberg et al., 2014). Forskerne fant at personer med RDA levde tilfredse og aktive liv med hensyn til utdanning, arbeid og fritidsaktiviteter og ikke skilte seg ut fra den svenske befolkningen i så måte.

De gode resultatene når det gjelder selvrapportert livskvalitet i vår studie skiller seg derimot fra funn Johansen og kollegaer gjorde i tverrsnittsstudien i 2016. Forskerne fant at voksne med RDA hadde nedsatt helserelatert livskvalitet på de fleste domener målt med SF36 og mest på det fysiske området (Johansen et al., 2016). Det som hadde negativ innflytelse på livskvaliteten i følge disse forskerne var ansettelsesstatus, andre samtidige sykdommer og konstant smerte. Utvalget i studien som var tilknyttet TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser kan riktignok i utgangspunktet tenkes å ha en overrepresentasjon av personer med armproblemer og livskvalitets problemer i og med at de aktivt har tatt kontakt med kompetansesenteret for hjelp og råd, samt at de hadde en skjev kjønnsandel med lavere andel menn. Utvalgsskjevhet skyldes i så fall at de med dårlig livskvalitet og helserelatert livskvalitet er de som svarer på skjemaet.

Høy grad av tilfredshet med livet i RDA-gruppen kan skyldes at vi har et utvalg med forholdsvis mange unge som har relativt god fysisk funksjon og en stor del er studenter eller i lønnet arbeid. Ifølge Johansen og kollegaer hadde det å være student eller å være i arbeid positiv påvirkning på livskvaliteten (Johansen et al., 2016).

Videre kan høy grad av tilfredshet med livet skyldes at personer med RDA har lært seg å leve med og aksepterer sine utfordringer (ibid). Dette synes å samsvare med funnene til Johansen

og kollegaer (2014) som i en kvalitativ studie om mestring av funksjonstap hos kvinner med en-arms dysmeli fant at kvinnene ikke betraktet seg selv som funksjonshemmede, men utviklet mestringsstrategier som gjorde at dagliglivet fungerte fint (Johansen et al., 2014).

Opplevd helse i dag

Både RDA-gruppen og kontrollgruppen opplever å ha god helse og begge gruppene skårer likt (figur 6) og det er ingen statistisk forskjell mellom gruppene (tabell 4). Funnene er i samsvar med det som rapporteres i Levekårsundersøkelsen i 2015, der 79 % vurderer sine helseforhold som svært gode eller gode (Statistisk sentralbyrå, 2018). Langt over halvparten av de som ikke bruker protese opplever en bedre opplevd helse enn protesebrukerne (figur 14), men gruppene er for små til at statiske analyser har tilstrekkelig styrke til å påvise signifikante forskjeller.

RDA-gruppen og kontroll gruppen vurderer sin generelle helse likt eller ganske likt når det gjelder mobilitet, egenomsorg, vanlige aktiviteter, smerter/ubehag, angst/depresjon målt i fem nivåer: ingen problemer, små problemer, moderate problemer, alvorlige problemer, og ekstreme problemer.

RDA-gruppen og kontroll gruppen skårer likt på mobilitet (figur 5a). De fleste har ingen problemer med å gå omkring. Det samme gjelder protesebruk/ikke protese bruk (figur 9), men tendensen er at de som ikke bruker protese oppgir større problemer.

Personlig stell går uten problemer for det store flertallet både hos RDA-gruppen og kontrollene gruppene (figur 5b). Egenomsorg utføres tilsvarende uten problemer av alle i protesegruppen og av de aller fleste i ikke-protesegruppen (figur 10).

Det som skiller RDA-gruppen mest fra kontrollgruppen er kategorien vanlige gjøremål (figur 5c), En større prosentandel av RDA-gruppen oppgir problemer med å utføre vanlige aktiviteter sett i forhold til kontrollgruppen. Likevel er det slik at flertallet i RDA-gruppen ikke har problemer med vanlige aktiviteter; av dem er det flest av de som ikke bruker protese som gjennomfører vanlige aktiviteter uten vansker (figur 11).

Smerter og ubehag er vanlig forekommende hos både RDA-gruppen og kontroll gruppen (figur 5d) og er den kategorien flertallet i begge gruppene skårer dårligst på av de fem helserelaterte kategoriene, lavest i RDA-gruppen. Smerteforekomsten synes ganske likt

fordelt i protesegruppen og ikke-protesegruppen; figur 12 viser at det i over halvparten i begge gruppene rapporteres en god del smerte og ubehag. Like mange i begge grupper har litt eller middels store smerter, mens en oppgir sterke smerter (protesebruker) og en oppgir svært sterke smerter (ikke-protesebruker).

Litt angst og depresjon er vanlig i under halvparten av både RDA-gruppen og kontroll gruppen men hyppigst forekommende i RDA-gruppen (figur 5e). Flere protesebrukerne oppgir at de har litt angst eller er deprimert enn de som ikke brukere protese (figur 13).

Protesebruk og livskvalitet

I utvalget vårt viste de som brukte protese en tendens til å ha høyere tilfredshet med livet enn de som ikke brukte protese (figur 8), men vi fant ingen signifikante forskjeller.

De fleste protesebrukerne i studien vår benyttet protesen sin daglig og det var en tendens til at flere kvinner valgte å bruke protese. De som valgte å bruke protese foretrakk i stor grad kosmetisk protese for å normalisere utseendet, avverge spørsmål og pynte seg. Dette ga trolig rom for økt livskvalitet og velvære gjennom ikke å stikke seg ut, ikke måtte forklare det vanskelige og det å kunne bevege seg ubemerket. Dette understøttes av studien til Johansen (2014) der forskerne fant at uønsket oppmerksomhet var en faktor som spilte inn på livskvaliteten til voksne (Johansen et al., 2014).

Det at protesebrukerne viste en tendens til større tilfredshet med livet enn de som ikke brukte protese kan stemme med at protesebruk kan være en håndteringsstrategi og bidra til et «normalisert» utseende og lettere hindre uønsket oppmerksomhet. Krantz og kollegaer viste at kvinner med RDA i alderen 20 til 30 år tilegnet seg strategier for å håndtere stigma gjennom at de begrenset informasjonen om sin egen annerledeshet i forhold til det som det som var ansett som «normalen» (Krantz et al., 2008).

Våre funn kan også underbygges med funn fra tidligere studier både på barn og voksne som viser at oppfatning om fysisk utseende, og uventet oppmerksomhet ser ut til å påvirke velværet (Breakey, 1997a; J. Varni & Setoguchi, 1991; J. W. Varni et al., 1996).

Hermansson og kollegaer (2005) fant i Sverige at det ble knyttet sosiale stigma til deformiteten hos barn med RDA. Hos jentene fant Hermansson at redusert protesebruk var forbundet med lavere skår på sosial kompetanse, mens dette var motsatt for guttene; hos

guttene økte den totale kompetanseskåren (sosial kompetanse, oppførsel, emosjoner) med redusert protesebruk. Dette forklares blant annet med at gutter og jenter utfører forskjellige aktiviteter der protesen kan betraktes som et problem av guttene og som hjelp av jentene (L. Hermansson et al., 2005). Hovedfunnet i studien var at svenske barn med RDA som har fått en myoelektrisk protese, gjorde det ganske bra. De globale resultatene viste ingen signifikante forskjeller mellom disse barna og de normative dataene.

Utseende så altså ut til å være en viktig faktor for mange av respondentene når det kom til bruk av protese. Utseendet signaliserer hvem du er og personer med et annerledes utseende må leve med virkningen av hvordan andre ser på dem og behandler dem (Stuve, 2007b, s. 67). Dette kan medføre tap av kontroll og selv små forskjeller kan oppleves som en stor sak i møte med andres blikk og kommentarer. Det er ubehagelig å bli beglodd og andres blikk er disiplinerende (J. Grue, 2018). Bruk av protese gir trolig større mulighet til å kontrollere hva en person med RDA utsetter seg for av reaksjoner fra omgivelsene.

En stor del av respondentene rapporterte at de brukte protesen for å skjule armen og for å normalisere utseendet, men også til støtte og i enkelte tohånds-aktiviteter. Funnene våre sammenfaller med funn James og kollegaer gjorde i en studie om påvirkning av protesebruk på funksjon og livskvalitet hos barn med unilateral underarmdysmeli (James et al., 2006). Forskerne konkluderte med at armproteser kan hjelpe i forhold til sosial akseptering eller være et nyttig redskap i spesialiserte aktiviteter. Armproteser synes derimot ikke å påvirke barnas funksjon eller livskvalitet, som nesten var lik resten av befolkningen for barn med ensidig underarmdysmeli uavhengig om de bruker protese eller ikke (James et al., 2006).

Protesetilpasning

Det finnes på verdensbasis generelt ingen offisielle behandlingsretningslinjer når det gjelder protesetilpasning, og anbefalingene er basert på beste praksis (McLaughlin et al., 2013; Meurs, Maathuis, Lucas, Hadders-Algra, & van der Sluis, 2006). I Norge tilbys personer med RDA fra tidlig spedbarnsalder tilpasning av armprotese (når de begynner å sitte). Dette er også vanlig i andre land i Europa og USA. Et generelt mål som beskrevet av Schuch (1998) i boken «Prosthetic principles in fitting myoelectric prostheses in children» er at barnet skal bli selvstendig, både med og uten protese, og for å fremme funksjon i henhold til aldersmessige milepæler (gjengitt etter McLaughlin et al., 2013). Den første passive protesen skal stimulere

til og fremme tohånds-aktiviteter og skal brukes jevnlig for å stimulere til krabbing (McLaughlin et al., 2013).

Behandlingstilbudet synes i Norge å være basert på ideen om at alle som trenger og ønsker det skal få tilbud om protesetilpasning for å oppnå bedre funksjon. Tanken bak behandlingstilbudet er at protese vil være med på å gjøre kroppen mindre asymmetrisk og således forbygge belastningsplager. Tanken er videre at tidlig bruk av protese er med å utvikle området i hjernen som styrer hånden (Meurs et al., 2006) og at det derfor vil være lettere å velge å bruke protese igjen, på et senere tidspunkt, dersom man har brukt protese som barn (Meurs et al., 2006). Hypotesen om at «tidligere kan være bedre» er i tråd med The neuronal Group Selectin Theory (NGST) som Edelman utviklet i 1989 (ibid). Meurs og kollegaer fant i en systematisk review av 285 publikasjoner (der kun fire studier møtte inklusjonskriteriene og den metodiske kvaliteten på studiene var tvilsom) ikke noe vitenskapelig bevis for sammenheng mellom når første protese var foreskrevet og funksjonelt resultat (Meurs et al., 2006). Trenden var lavere avvisningstendens og bedre funksjon hos de som hadde fått tilpasset protesen sin før to-årsalder (Meurs et al., 2006).

I vår studie valgte over halvparten av de som fikk tilpasset protese å stoppe å bruke protesen sin ved elleve-tolv årsalder. Blant dem hadde flertallet (n = 7 av 11) (mangler alder data på en) fått tilpasset protese i løpet av sine to første leveår. Blant individene i vår studie som fortsatte å bruke protesen sin hadde også flertallet (n = 9 av 12) (mangler alder data på en) fått tilpasset protese i løpet av sine to første leveår. Dette stemmer med trenden som Meurs og kollegaer (2006) antyder i sin systematiske review ((Meurs et al., 2006).

Det synes viktig å presisere at den kulturelle konteksten i behandlingen må inkludere verdier, moral og forventninger til det aktuelle barnet, familien og samfunnet (McLaughlin et al., 2013). Realistiske mål og forventninger er avgjørende for god behandling; til tross for svært avansert protese teknologi, så vil en protese aldri gi 100 % normal funksjonalitet eller utseende (ibid). Forventet bruk, kostnad / nytte og brukervennlighet må være veiledende når man tar beslutning om tilpasning av armprotese eller ikke (McLaughlin et al., 2013; Meurs et al., 2006).

Det finnes altså, med mitt kjennskap, ingen offisielle retningslinjer og få metodisk gode analyser med dokumentert begrunnelse for behandlingstilbudet. Nasjonalt fagnettverk for dysmeli i Norge har i lys av dette nedsatt (2017) en arbeidsgruppe som jobber med å

systematisere det som finnes av evidens og beste praksis for å lage nasjonale anbefalinger for habilitering/rehabilitering av personer med transversell reduksjonsdefekt i armene i Norge.

Som fagfolk ønsker vi det gode – det som vi er overbevist om er et gode, - i dette tilfellet er beste praksis at alle skal få muligheten til å bruke protese hvis de ønsker det. Det er en god intensjon. Samtidig er det noen som har egeninteresse av å tilby proteser til alle. Det er jo også en business som ortopediske verksteder og produsenter av proteser og protesekomponenter tjener penger på og det bør nevnes også. Det er faktisk en del av bildet, men som det ikke snakkes så høyt om. Når vi er inspirert av den gode intensjon om å hjelpe pasienten, så kan intensjonen ende opp som en slags i mangel av et bedre ord –propagandist- for protesebruk.

5.1 Styrker og svakheter ved studien

Utvalget av personer med RDA i denne studien er identifisert ved Norges største sykehus som har størst tilfang av personer registrert med reduksjonsdeformitet i armene; for eksempel gjennom Fødeavdelingen, Barneavdelingen, Ortopedisk avdeling, samt gjennom at andre regionale helseforetak henviser pasienter til Oslo universitetssykehus. Det betyr at noen av respondentene ikke har vært i kontakt med helsevesenet siden fødsel, noen møter kun til kontroll uten spesielle problemer, noen søker aktivt hjelp, mens andre har sammensatte problemer. Det kan ha gitt oss et mer variert og representativt utvalg av RDA populasjonen sett i forhold til tidligere studier som er gjort på denne gruppen i Norge; tidligere studier i Norge er foretatt på personer som aktivt har oppsøkt helsetjenesten (TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser) for hjelp relatert til sin reduksjonsdeformitet (Johansen et al., 2014; Johansen, Bathen, Andersen, Rand-Hendriksen, & Ostlie, 2018; Johansen et al., 2015, 2016).

RDA-gruppen og kontrollgruppen fra den generelle befolkningen var like med hensyn til demografiske variabler med unntak av alder. Kontroll gruppen var signifikant eldre. Ved å trekke ut og sammenligne den yngste gruppen i utvalgene fant vi samme tendens som i utvalget som helhet. Aldersforskjellen mellom RDA-gruppen og kontroll gruppen har sannsynligvis ikke spilt noen statistisk rolle for resultatene. Det er en signifikant forskjell også i den yngste aldersgruppen.

Det er benyttet anerkjente og internasjonalt mye brukte validerte og reliable skjema (SWLS, EQ5D-5L-VAS, KvikkDASH), de *norske* versjonene av skjema er dog ikke testet for

reliabilitet og validitet og responsivitet. Det er tatt med egenutviklede spørsmål som ga respondenten mulighet til med egne ord å angi årsak til protesebruk eller ikke. Selv om skjemaet vårt mangler spørsmål direkte relatert til utseende, var det rom for at pasientene med egne ord kunne sette ord på dette og årsaken til protesebruk ble av mange knyttet opp mot utseendet.

Det er brukt selvrapporterte data. Respondentene bestemmer selv om de vil være med i spørreundersøkelsen, svarprosenten i RDA-gruppen var 58 %, noe som er forholdsvis bra. Pasientgruppen var signifikant yngre enn kontrollene; median henholdsvis 27 år og 48 år. Halvparten i RDA-gruppen hadde høy utdanning og tilsvarende i kontrollgruppen var 58 %. Personer som har høyere utdanning, kommer fra høyere sosiale lag av befolkningen, har større behov for å føle seg godtatt, er mer sosiale og har større sannsynlighet for å delta i en studie (Cassie Trevin 2017). De som er høyt utdannet og interessert i helse blir med. De som har vanskelig med å skrive er ikke sannsynlige deltagere. Skjema var kun på norsk og det er trolig lite sannsynlig at innvandrere var med (Cassie Trevin 2017).

At begge grupper rapporterte like godt på livskvalitet kan muligens skyldes utvalgsskjevhet i kontrollene. Det vil i så fall si at de med dårlig livskvalitet og helserelatert livskvalitet er de som svarer på skjemaet. Det oppstår en seleksjon bias i kontroll gruppen. De som svarer, svarer på det de er interessert i. Det er ikke urimelig å anta at vi har en overrepresentasjon fra den generelle norske befolkningen av personer med armproblemer og livskvalitets problemer. Det er større spredning i resultatene i kontrollgruppen noe som muligens kan tyde på at dette er tilfellet. På den annen side er utvalget vårt såpass stort at noe av dette skal være eliminert og at det faktisk forholder seg i slik som vi ser i vår studie i den generelle befolkningen.

Tilbud om belønning (Ipad ved loddtrekning) for deltagelse kan ha påvirket ønsket om deltagelse.

Pasientgruppen er uensartet med få personer i hver subgruppe, men det er forholdsvis mange i subgruppen med mangel kun på hånd – det vil si personer med relativt god fysisk funksjon. Vi kan derfor ha en ung, frisk og godt fungerende RDA gruppe med relativt få plager og begrenset erfaring med livskvalitets problemer som vi sammenlikner med en eldre kontrollgruppe som kan hende er overrepresentert med armproblemer og livskvalitets problemer.

For å få mest mulig sammenlignbare grupper ble det er gjort sammenlikninger på subgruppenivå mellom protesebrukere og ikke-protesebrukere i Q71.2 gruppen. Denne pasientgruppen er den mest homogene gruppen i utvalget og alle hadde et godt utgangspunkt for tilpasning av protese og en potensielt høy nytteverdi av et slikt hjelpemiddel. Svakheten er at vi har få individer i hver gruppe. Ved sammenlikning av protesebruk og ikke-protesebruk fører det til redusert statistisk styrke når det gjelder forskjeller mellom gruppene.

Bruk av ikke-parametriske tester involverer svakere forutsetninger og utnytter derfor ikke alltid all tilgjengelig informasjon (Grande, 2016). De er mindre effektive – det vil si at sjansen for en Type II feil er større (ibid). Det betyr at vi kan komme i skade for å opprettholde en falsk nullhypotese fordi vi feilaktig tror at gruppene våre er like (Altmann, 1991, s.169). Vi er «overforsiktige» og forkaster den alternative forklaringen selv om den egentlig stemmer. I denne studien er det viktig ikke å feilaktig forkaste den alternative hypotesen, fordi dersom gruppene våre er forskjellige med hensyn til funksjon og livskvalitet i disfavør av RDA-gruppen krever det handling for å forebygge dysfunksjon og nedsatt livskvalitet for å unngå lidelse hos personer med RDA.

Ved bruk av ikke-parametriske metoder er det ikke noen forutsetninger knyttet til formen på fordelingen til selve observasjonene. Men, dersom observasjonene våre faktisk stammer fra en normalfordeling, vil en ikke-parametrisk test ha noe lavere teststyrke enn en parametrisk test, og vi vil trenge noen flere observasjoner for å avdekke sanne effekter eller forskjeller (Skovlund, 2017). Dessuten, en ikke-parametrisk metode krever likevel at fordelingene som skal sammenliknes har samme spredning og form (ibid). Begge utvalgene våre er skjeve, og kan kanskje tolkes til å ha ulik spredning. Hvis dette er tilfellet ville en t-test være mindre sårbar for ulik spredning enn en ikke-parametrisk test, i alle fall når de to utvalgene er like store (ibid). Gitt at spredningen i utvalgene er forskjellig vil ifølge Skovlund verken en Mann Whitney U-test eller en t-test gi riktig p-verdi. Det mest nærliggende kunne kanskje vært å transformere variablene slik at fordelingen ble tilnærmet normal. En logaritmetransformasjon vil ofte kunne gjøre en skjev fordeling med noen få høye verdier mer normalfordelt og en t-test vil da kunne benyttes (ibid). Det er relativt lettere å håndtere brudd på forutsetningen om lik spredning når vi benytter parametriske tester (Skovlund, 2017).

I vår studie har vi lagt til grunn at antallet i RDA-gruppen og kontroll gruppen ikke er like store og vi har tolket fordelingen som skjev og spredningen som relativt lik og har således valgt ikke-parametrisk statistikk på alle variablene.

5.2 Etiske refleksjoner

Fordeler

Helsepersonell har begrensede muligheter til å svare på spørsmål fra bekymrede foreldre fordi det er begrenset med viten om hvordan personer med RDA lever livene sine (Sjoberg et al., 2014). En fordel ved studien er derfor at personer med RDA, og fagmiljøer som yter tjenestetilbud til dem, vil ha fordel av at kunnskapsgrunnlaget for den informasjonen som gis forbedres, og pårørende vil få forskningsbasert informasjon om diagnosegruppen. Helsepersonell vil kunne tilegne seg bedre kunnskapsgrunnlag for rådene de gir.

Mange med RDA har behov for livslang oppfølging. Målrettet og kunnskapsbasert informasjon vil kunne bidra til optimal livskvalitet hos denne pasientgruppen. Dette vil være samfunnsøkonomisk gunstig blant annet gjennom at ressurskrevende behandlingstiltak, av materiell og menneskelig karakter, settes i verk bare dersom pasienten og pårørende er motivert og der tiltakene er hensiktsmessige for å bedre funksjonen eller livskvaliteten for den enkelte.

Ulemper

Ulemper ved et slikt prosjekt som denne studien er at fokus på annerledeshet og plager kan gi økt oppmerksomhet for den enkelte deltager på en virkelighet som ikke kan endres nevneverdig (Stuve, 2007b, s. 107). Plager kan oppleves som mer påtrengende når det settes fokus på dem. I boka *The Psychology of Appearance* mener forfatterne Rumsey og Harcourt (2005) at et annerledes utseende er et følsomt tema å forske på (Rumsey & Harcourt, 2005, s. 29). Det kan skape vansker for og skade personer som deltar i studier å fokusere for mye på denne siden av livet deres (Rumsey & Harcourt, 2005, s. 29).

Personer med reduksjonsdefekt i armene må lære seg å tilpasse sin funksjon i krevende omgivelser. Det kan innebære å bearbeide egne tankemønstre, handlemåter og følelser og utvikle en bredde i sine mulige mestringsstrategier og forsvarsmekanismer. Mange velger å fokusere på det de får til og de har en optimistisk tilnærming til utfordrende situasjoner.

Seligman (1999) har demonstrert at en slik holdning kan forebygge helseproblemer og depresjon (Seligmann, 1999).

Tilpasningen til et liv med annerledes utseende er mer komplekst enn problemstillingen i et enkelt forskningsopplegg som dette kan gi fullgodt svar på. Gjennom å bli minnet på sin utilstrekkelighet, smerteplager og annerledeshet kan slike forskningsprosjekt til og med tenkes ha en negativ innvirkning på livskvaliteten til enkelte individer.

Forsvarlighet

Reduksjonsdefekt er regnet som en sjelden diagnose og gruppen som er undersøkt er forholdsvis liten. Det er derfor viktig å ta hensyn til at enkelte kan være sårbare i forhold til gjenkjenning. Vi har ikke ansett det som sannsynlig at personene i denne studien skal kunne identifiseres basert på sin deforme ekstremitet og der det i undergruppene er færre enn fem individer inngår de sammen med andre subgrupper. Studien er REK- godkjent og data er anonymisert.

5.3 Klinisk relevans

På bakgrunn av denne studien kan pasientene og pårørende få informasjon om at barn født med en medfødt misdannelse (reduksjonsdefekt) i arm lever tilfredse liv med høy helserelatert livskvalitet som voksne, til tross for noe lavere fysisk funksjon. Det bør gis oppmerksomhet av fagpersoner i møte med personer med RDA at de, og spesielt kvinner, skårer lavere på funksjon enn den generelle befolkningen, slik at behov for veiledning og tilrettelegging kan ivaretas fra de er små.

Funnene indikerer at tilfredshet med livet og helserelatert livskvalitet hos voksne personer med RDA er høy og like høy som i normalbefolkningen i Norge. Det er viktig å formidle dette til nybakte foreldre som ofte kan være i sorg over å ha mistet «drømmebarnet» og som sitter med mange spørsmål med hensyn til fremtiden til barnet. Foreldre kan ofte bekymre seg svært mye over barnets muligheter til å utføre daglige aktiviteter, velge utdanning og arbeid som følge av sin deforme ekstremitet (Sjøberg et al., 2014).

Basert på resultatene er det ikke gitt at tilbud om en armprotese er et ubetinget gode slik intensjonen til fagfolk har vært. Resultatene våre indikerte at det ikke oppnås bedre i funksjon i protesegruppen og at bruk av protese kan innebære frustrasjon og plage. Samtidig viste resultatene at mange ønsket å bruke protesen for å skjule sin defekte arm og tilpasse seg et kroppsbilde som passer inn i «normalen». I vestlige samfunn legges det stor vekt på utseende og det er viktig å ta på alvor at mange vil ønske å kunne skjule sin annerledeshet. Ved å bruke en protese vil de lettere gli inn i den «normale» verden. Dette kan for noen være viktigere enn at protesen er funksjonell. Dette stemmer med hva personer med dysmeli opplyser i andre sammenhenger. Mange synes det er lettere å gjøre ting uten protesen, men bruker den for vennene vil at de skal gjøre det (Haug, 2007, s. 35)

Men, dette med annerledeshet og ikke å passe inn i den vanlige malen er kanskje et problem som burde adresseres av behandlingsapparatet ved å fokusere på tiltak som bygger opp selvfølelsen og selvbildet, istedenfor å fokusere på tiltak som bidrar til å opprettholde et bilde av normalitet som vedkommende skal passe inn i. Folk trenger generelt mer kunnskap om det å være funksjonshemmet og på den måten vil det kanskje bli lettere å være slik du er, uten å behøve å skjule deg nærmest for å beskytte andre mot å se at noe kan være annerledes.

Resultatene viser at mange gir uttrykk for ubehag, dårlig passform, liten praktisk nytte og sterke negative følelser knyttet til protesen. Protesetilpasning bør derfor innebære svært nøye kartlegging av behov og motivasjon for å bruke protese. Dersom protesen skal ha praktisk nytteverdi er det avgjørende at passformen er god og at brukeren får hjelp til å trene opp ferdigheter i å bruke protesen. Årsaken til at respondentene i vår studie stoppet opp med å bruke protesen kan være at oppfølgingen ikke var god nok, men dette fremgår ikke av våre data. Dersom det handler om å normalisere utseendet bør protesen ha et attraktivt utseende. Man bør også se dette behovet opp i mot andre tiltak som handler om å akseptere og bli glad sin egen kropp slik den er, særlig i de tilfellene der protesen kanskje gjør utførelse av aktivitet mer tungvint eller den påfører svak muskulatur ekstra slitasje gjennom påført vekt.

Foreldrene ønsker det beste for barna og tar valg, som regel etter råd fra fagfolk, om tiltak som for eksempel det å få tilpasset protese. Bruk av en funksjonell protese krever ikke minst en godt tilpasset protese, men også disiplin, innsatsvilje og opplevelse av nytte, samt mye oppfølging av kvalifisert personale. Erfaringen i klinikken har vist at protesen ofte er blitt liggende ubrukt, men tas frem i forbindelse med kontroll på dysmeliklinikken (personlig erfaring og meddelelse fra medlemmer i Dysmeli- og armproteseteamet, Oslo

universitetssykehus) og vi ser i denne studien at over halvparten som har fått tilpasset protese i spedbarnsalder slutter å bruke protesen i god tid før tenårene setter inn.

Både klinisk erfaring og funnene i denne studien reiser noen spørsmål som fagfolk bør reflektere over. Har vi for stor tiltro til forordning av proteser og følges tiltaket tilstrekkelig opp når det først er rekvirert? Er vi fagfolk, i vår iver etter å hjelpe, med på å legge sten til byrden når vi forordner en hard, «ufølsom» plastprotese til små barn og pålegger foreldrene å følge opp treningen og bruken av protesen? Frarøver vi barnet muligheten til å akseptere seg selv og bli akseptert slik som det er?

En vanlig observasjon i møte med disse personene i klinikken er at holdningen til livets utfordringer ofte er avgjørende for hvordan den enkelte greier seg. «Det er ikke hvordan du har det, men hvordan du tar det». Dette støttes av mange studier i helsepsykologi som i følge Stuve (2007) har pekt på optimisme som en god tilnærming ved spesielt utfordrende livssituasjoner (Stuve, 2007b, s. 108).

6 Konklusjon

Funnene fra denne kartleggingsstudien indikerer at voksne personer med RDA har god, men noe nedsatt funksjon sammenliknet med den generelle befolkningen og at kvinnene skårer dårligst. De er tilfredse med livene sine og føler at ting går bra enten de bruker protese eller ikke. Livet er ikke perfekt, men de opplever at det meste er bra innen arbeid eller skole, familie, venner, fritid og personlig utvikling i samsvar med det vi ser hos den generelle befolkningen.

I gruppen med mangel på både underarm og hånd er det ingen signifikant forskjell verken på livskvalitet eller funksjon mellom protesebrukere og ikke-protesebrukere. Litt under halvparten avviser bruken av protese på grunn av dårlig passform, tyngde, dårlig funksjon og liten opplevd praktisk nytteverdi. Størstedelen av protesebrukerne benytter protese daglig og protesen brukes av en stor del for å normalisere utseendet og unngå uønsket oppmerksomhet, samt til støtte og spesialiserte aktiviteter.

Videre arbeid

Videre refleksjon og diskusjon i fagmiljøene rundt holdninger og motivet for å tilpasse en protese anbefales. Videre analyser og prospektiv forskning anbefales. Gjennomføring av kvalitative studier for å undersøke årsak til bruk/ ikke bruk av protese vil gi et mer komplett bilde av årsaksfaktorene. En bredere forståelse for faktorer som påvirker foreskriving av protese og protesebruk vil kunne optimalisere behandlingstilbudet, foreskrivingen av proteser, bidra til bedre design og tilfredsstillende kravet om evidensbasert intervensjon.

Litteraturliste

- Altmann, D. G. (1991). *Practical statistics for medical research* (1999 ed.). Boca Raton, London, New York, Washington, D.C.: Chapman&Hall/CRC.
- Anderson, K. L., & Burckhardt, C. S. (1999). Conceptualization and measurement of quality of life as an outcome variable for health care intervention and research. *J Adv Nurs*, 29(2), 298-306.
- Beaton, D. E., Wright, J. G., & Katz, J. N. (2005). Development of the QuickDASH: comparison of three item-reduction approaches. *Journal of Bone and Joint Surgery (American)*, 87A(5)(5), 1038-1046. doi:10.2106/jbjs.d.02060
- Biddiss, E. A., & Chau, T. T. (2007). Upper limb prosthesis use and abandonment: a survey of the last 25 years. *Prosthet Orthot Int*, 31(3), 236-257. doi:10.1080/03093640600994581
- Breakey, J. W. (1997a). Body Image: The Inner Mirror. *Jpo Journal of Prosthetics and Orthotics*, 9(3), 107-112.
- Breakey, J. W. (1997b). Body image: the inner mirror. *JPO: Journal of Prosthetics and Orthotics*, 9(3), 107-112.
- Burger, H., & Vidmar, G. (2016). A survey of overuse problems in patients with acquired or congenital upper limb deficiency. *Prosthet Orthot Int*, 40(4), 497-502. doi:10.1177/0309364615584658
- Bye, K. (2007). *Dysmeli og belastningsplager*. Dysmeliseminaret "Kunsten å fremme god helse". Nasjonalt kompetansesenter for dysmeli på Rikshospitalet-Radiumhospitalet, Oslo.
- Clubok, L. F. (2004, 2004). On The Other Hand...I have a Thumb. «*Building a Balanced Body for Children with Hand Anomalies*». Retrieved from www.ontheotherhand.org
- Cohen, J. (1988). *The Effect Size Index: d. Statistical Power Analysis for the Behavioral Sciences*. (2 ed.). Hillsdale, NJ: Lawrence Earlbaum Associates.
- Dagfinrud, H. (2016). *Forelesningsnotater* Universitetet i Oslo.
- Datta, D., Seelvarajah, K., & Davey, N. (2004). Functional outcome of patients with proximal upper limb deficiency-acquired and congenital. *Clin Rehabil*, 2004(18), 172-177.
- deVibe, M. (2014). Hvorfor ikke satse på helse?: Hva vet vi, og hva kan vi gjøre? . Oslo: Forum for Livsstyrketrenerne
- Diener, E. (2006). Understanding Scores on the Satisfaction with Life Scale.
- Diener, E., Emmons, R. A., Larsen, R. J., & Griffin, S. (1985). The satisfaction with life scale. *Journal of personality assessment*, 49(1), 71-75.
- Eklblom, A. G., Laurell, T., & Arner, M. (2010). Epidemiology of congenital upper limb anomalies in 562 children born in 1997 to 2007: a total population study from stockholm, sweden. *J Hand Surg Am*, 35(11), 1742-1754. doi:10.1016/j.jhsa.2010.07.007
- Ephraim, P. L., Dillingham, T. R., Sector, M., Pezzin, L. E., & MacKenzie, E. J. (2003). Epidemiology of Limb Loss and Congenital Limb Deficiency: A Review of the Literature. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 84(5), 747-761. doi:[https://doi.org/10.1016/S0003-9993\(02\)04932-8](https://doi.org/10.1016/S0003-9993(02)04932-8)
- Ephraim, P. L., Wegener, S. T., MacKenzie, E. J., Dillingham, T. R., & Pezzin, L. E. (2005). Phantom Pain, Residual Limb Pain, and Back Pain in Amputees: Results of a National Survey. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 86(10), 1910-1919. doi:<http://dx.doi.org/10.1016/j.apmr.2005.03.031>
- Evans, J. A., Vitez, M., & Czeizel, A. (1994). Congenital abnormalities associated with limb deficiency defects: a population study based on cases from the Hungarian Congenital

- Malformation Registry (1975-1984). *American Journal of Medical Genetics*, 49(1), 52-66. doi:10.1002/ajmg.1320490111
- Finsen, V. (2008). Norwegian version of the DASH questionnaire for examination of the arm shoulders and hand. *Tidsskrift for den Norske legeforening*, 128(9), 1070.
- Frøslie, K. (2015). [Statistiske analyser i kvantitativ metode. Undervisningsrekke på Oslo universitetssykehus høsten 2015.].
- Gold, N. B., Westgate, M. N., & Holmes, L. B. (2011). Anatomic and etiological classification of congenital limb deficiencies. *Am J Med Genet A*, 155a(6), 1225-1235. doi:10.1002/ajmg.a.33999
- Grande, T. (2016). Testing the Assumption of Similar Distribution Shape for the Mann-Whitney U Test using SPSS Retrieved from <https://www.youtube.com/watch?v=1kVKPRGK6i8>
- Grue, J. (2018). *Jeg lever et liv som deres* (1. utgave ed.): Gyldendal.
- Grue, L. (2004). *Funksjonshemmet er bare et ord: forståelser, fremstillinger og erfaringer*, (1. utg. ed.): Abstrakt Forlag.
- Grue, L. (2016). *Normalitet*: Fagboklaget.
- Hanley, M. A., Ehde, D. M., Jensen, M., Czerniecki, J., Smith, D. G., & Robinson, L. R. (2009). Chronic Pain Associated with Upper-Limb Loss. *American Journal of Physical Medicine & Rehabilitation*, 88(9), 742-751. doi:10.1097/PHM.0b013e3181b306ec
- Haug, M. K. (2007). *Et annerledes utseende : historier og temaartikler*. Nesoddtangen: Trenings- og rådgivningscenteret, Sunnaas sykehus.
- Helsedirektoratet. (2006). Personvern og informasjonssikkerhet i forskningsprosjekter innenfor helse- og omsorgssektoren *Norm for informasjonssikkerhet (Normen)* (1.2 ed., pp. 28): Direktoratet for e-helse.
- Lov om medisinsk og helsefaglig forskning (helseforskningsloven) (2008).
- Helsekompetanse.no. Normalitetsforståelse. *Mangfold og muligheter*. Retrieved from Normalitetsforståelse
- Helsekompetanse.no. (2018). Normalitet og normalisering. *Mangfold og muligheter*. Retrieved from <http://kurs.helsekompetanse.no/inkludering/18728>
- Helsenorge.no. (2018). Dismeli. Retrieved from <https://helsenorge.no/sykdom/sjeldne-diagnoser/dismeli>
- Helseth, S. (2001). Livskvalitet hos barn. Livskvalitet som styrende begrep i helsefremmende og forebyggende arbeid blant barn. *VÅRD I NORDEN*, 21(1), 40–44.
- Hermansson, L. (2004). *Upper limb reduction deficiencies in Swedish children : classification, prevalence and function with myoelectric prostheses*. (PhD), Karolinska Institutet, Stockholm. Retrieved from <http://www.diva-portal.org/smash/record.jsf?pid=diva2%3A608804&dswid=1559>
- Hermansson, L., Eliasson, A. C., & Engström, I. (2005). Psychosocial adjustment in Swedish children with upper-limb reduction deficiency and a myoelectric prosthetic hand. *Acta Paediatr*, 94(4), 479-488.
- Hermansson, L., Fisher, A. G., Bernspang, B., & Eliasson, A. C. (2005). Assessment of capacity for myoelectric control: a new Rasch-built measure of prosthetic hand control. *J Rehabil Med*, 37(3), 166-171. doi:10.1080/16501970410024280
- Holm, I. (2013). *Helseøkonomisk evaluering av fysioterapibehandling i primærhelsetjenesten: En metodestudie*. (Master), Universitetet i Oslo, Oslo.
- Høyem, A. (2008). *ICF i rehabilitering: forståelse og bruk* (1. utg. ed.): Aldring og helse.
- Irgens, L. M. (2000). The Medical Birth Registry of Norway. Epidemiological research and surveillance throughout 30 years. *Acta obstetricia et gynecologica Scandinavica*, 79(6), 435-439.

- James, M. A., Bagley, A. M., Brasington, K., Lutz, C. I., McConnell, S., & Molitor, F. (2006). Impact of Prostheses on Function and Quality of Life for Children with Unilateral Congenital Below-the-Elbow Deficiency. *The Journal of Bone & Joint Surgery*, 88(11), 2356-2365. doi:10.2106/jbjs.e.01146
- Jensen, A. (2009). *Sosiale ulikheter i bruk av helsetjenester. En analyse av data fra Statistisk sentralbyrås levekårsundersøkelse om helse, omsorg og sosial kontakt*, (ISBN 978-82-537-7548-7 Elektronisk versjon). Retrieved from Oslo–Kongsvinger:
- Johansen, H., Andresen, I. L., & Thorsen, K. (2014). Mestring av funksjonstap og smerter hos kvinner med en-arms dysmeli: Fra prosjektet «livsløp og aldring hos personer med en sjelden tilstand (40+)». *Ergoterapeuten*(5), 36-42.
- Johansen, H., Bathen, T., Andersen, L. O., Rand-Hendriksen, S., & Ostlie, K. (2018). Chronic pain and fatigue in adults with congenital unilateral upper limb deficiency in Norway. A cross-sectional study. *PLoS One*, 13(1), e0190567. doi:10.1371/journal.pone.0190567
- Johansen, H., Østlie, K., Andersen, L. O., & Rand-Hendriksen, S. (2015). Adults with congenital limb deficiency in Norway: demographic and clinical features, pain and the use of health care and welfare services. A cross-sectional study. *Disabil Rehabil*, 37(22), 2076-2082. doi:10.3109/09638288.2014.998781
- Johansen, H., Østlie, K., Andersen, L. O., & Rand-Hendriksen, S. (2016). Health-related quality of life in adults with congenital unilateral upper limb deficiency in Norway. A cross-sectional study. *Disability & Rehabilitation*, 38(23), 2305-2314. doi:<https://dx.doi.org/10.3109/09638288.2015.1129450>
- Jones, L. E., & Davidson, J. H. (1999). Save that arm: a study of problems in the remaining arm of unilateral upper limb amputees. *Prosthet Orthot Int*, 23(1), 55-58.
- Kallevik, S. A. (2007). Et annerledes møte - også for fagpersoner. In M. K. Haug (Ed.), *Et annerledes utseende. historier og tematikler* (pp. 73-75). Oslo: TRS, SSD, Frambu.
- Kennedy, C. A., & American Academy of Orthopaedic Surgeons. (2011). *The DASH and QuickDASH outcome measure user's manual* (3rd ed.). Toronto, Ontario: Institute for Work & Health.
- Kjærstad, H. P. (2018). Skrot p-verdiene forskere. *Forskning.no*.
- Klungesøyr, K. (upubliserte data). *Dysmeli i Norge - "kvalitetsregister" over reduksjonsdefekter i medisinsk fødselsregister: Et prosjektsamarbeid mellom Medisinsk fødselsregister og Nasjonalt kompetansesenter for dysmeli*. Medisinsk fødselsregister. Bergen.
- Krantz, O., Bolin, K., & Persson, D. (2008). Stigma-Handling Strategies in Everyday Life among Women aged 20 to 30 with Transversal Upper Limb Reduction Deficiency. *Scandinavian Journal of Disability Research*, 10(4), 209-226. doi:10.1080/15017410801900374
- Laake, P., Hjartåker, A., Thelle, D. S., & Veierød, M. B. (2007). Epidemiologiske og kliniske forskningsmetoder. In M. B. Veierød (Ed.), *Epidemiologisk og klinisk forskning* (1.utgave, 2.opplag 2013 ed., pp. 33-44). Oslo: Gyldendal Akademisk.
- Larsson, B., & Frisk, M. (1999). Social competence and emotional/behaviour problems in 6–16 year-old Swedish school children. *Eur Child Adolesc Psychiatry*, 8, 24–33.
- Lid, I. M. (2014). Gap Modellen. Retrieved from <https://snl.no/gap-modellen>
- Lie, I. (1996). *Rehabilitering og habilitering: prinsipper og praktisk organisering* (2. utg. ed.): Ad Notam Gyldendal.
- McGuirk, C. K., Westgate, M. N., & Holmes, L. B. (2001). Limb deficiencies in newborn infants. *Pediatrics*, 108(4), E64.
- McLaughlin, M., Lisenby, S., Sharma, S., & Modrcin, A. C. (2013, 28.06.2018). Congenital Upper Limb Deficiency. Retrieved from <https://now.aapmr.org/congenital-upper-limb-deficiency/>

- Medisinsk Fødselsregister (MFR). (2018). Medisinsk fødselsregisters statistikkbank. Retrieved from <http://statistikkbank.fhi.no/mfr/>
- Meurs, M., Maathuis, C. G., Lucas, C., Hadders-Algra, M., & van der Sluis, C. K. (2006). Prescription of the first prosthesis and later use in children with congenital unilateral upper limb deficiency: A systematic review. *Prosthet Orthot Int*, 30(2), 165-173. doi:10.1080/03093640600731710
- Nortvedt, P., & Grimen, H. (2004). *Sensibilitet og refleksjon: filosofi og vitenskapsteori for helsefag*. Oslo: Gyldendal Akademisk.
- Næss, S. (1986). *Yrkeskvinne - husmor? : gifte kvinners livskvalitet*. Oslo Dewey Retrieved from https://urn.nb.no/URN:NBN:no-nb_digibok_2008061000026
- Olsson, H., & Sörensen, S. (2003). *Forskningsprosessen: Kvalitative og kvantitative perspektiver* (1.utgave, 2.opplag ed.). Oslo: Gyldendal Norsk Forlag AS
- Pavot, W., & Diener, E. (2009). Review of the satisfaction with life scale *Assessing well-being* (pp. 101-117): Springer, Dordrecht.
- Pavot, W., Diener, E., Colvin, C. R., & Sandvik, E. (1991). Further validation of the Satisfaction with Life Scale: Evidence for the cross-method convergence of well-being measures. *Journal of personality assessment*, 57(1), 149-161.
- Personopplysningsforskriften kapittel 2 og 3 - ISO/IEC 27001, (2018).
- Postema, K., van der Donk, V., van Limbeek, J., Rijken, R. A., & Poelma, M. J. (1999). Prosthesis rejection in children with a unilateral congenital arm defect. *Clin Rehabil*, 13(3), 243-249. doi:10.1177/026921559901300308
- Postema, S. G., Bongers, R. M., Brouwers, M. A., Burger, H., Hermansson, L. N., Reneman, M. F., . . . van der Sluis, C. K. (2016). Musculoskeletal Complaints in Transverse Upper Limb Reduction Deficiency and Amputation in The Netherlands: Prevalence, Predictors, and Effect on Health. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 97(7), 1137-1145. doi:<http://dx.doi.org/10.1016/j.apmr.2016.01.031>
- Postema, S. G., van der Sluis, C. K., Waldenlöv, K., Hermansson, L. N., & Monsonogorann, E. (2012). Body Structures and Physical Complaints in Upper Limb Reduction Deficiency: A 24-Year Follow-Up Study (Follow-Up of Upper Limb Reduction Deficiency). 7(11), e49727. doi:10.1371/journal.pone.0049727
- Pripp, A., H. (2017). Antalls- og styrkeberegninger i medisinske studier. *Tidsskr Nor Legeforen*(17). doi:doi: 10.4045/tidsskr.17.0414
- Pruitt, S. D., Varni, J. W., Seid, M., & Setoguchi, Y. (1998). Functional status in limb deficiency: development of an outcome measure for preschool children. *Arch Phys Med Rehabil*, 79(4), 405-411.
- Reinkingh, M., Reinders-Messelink, H. A., Dijkstra, P. U., Maathuis, K. G., & van der Sluis, C. K. (2014). Stump sensibility in children with upper limb reduction deficiency. *J Rehabil Med*, 46(1), 51-58. doi:10.2340/16501977-1220
- Rise, N., Songstad, N., Rosendahl, K., Rustad, C., & Hulleberg, G. (2017). Anbefalinger for utredning av nyfødte med reduksjonsdefekter – generell veileder 2017. Retrieved from <http://www.helsebiblioteket.no/retningslinjer/pediatri/revmatologi-ortopedi/anbefalinger-for-utredning-av-nyfodte-med-reduksjonsdeformiteter>
- Rumsey, N., & Harcourt, D. (2005). *The Psychology of Appearance* England: Open University Press.
- Røislien, J., & Frøslie, K., F. (2013). *Tall forteller. Hvordan bruke tall til å finne ut om verden slik den er* (1.utgave, 1. opplag ed.). oslo: Gyldendal Norsk Forlag
- Seligmann, M., E., P., (1999). Positive Social Science. *Journal of Positive Behavior Interventions*, 1(3), 181-182 doi:<https://doi.org/10.1177/109830079900100306>

- Sjoberg, L., Nilsagard, Y., & Fredriksson, C. (2014). Life situation of adults with congenital limb reduction deficiency in Sweden. *Disabil Rehabil*, 36(18), 1562-1571. doi:10.3109/09638288.2013.854839
- Skarstad, K. (2018). FN Konvensjon om rettigheter for mennesker med nedsatt funksjonsevne. Retrieved from <https://snl.no/FN-konvensjon-om-rettigheter-for-mennesker-med-nedsatt-funksjonsevne>.
- Skovlund, E. (2017). Når bør man velge en ikke-parametrisk metode? *Tidsskr Nor Legeforen*. doi:DOI: 10.4045/tidsskr.17.0219
- SPSS. (2015). IBM SPSS (Statistical Package for Social Sciences) Statistics Version 23. (Version 23.0). Armonk, NY: IBM Corp.
- Statistisk sentralbyrå. (2018, 20.06.16). Helseforhold, levekårsundersøkelsen. Retrieved from <https://www.ssb.no/helse/statistikker/helseforhold>
- Stockselius, A. (2000). *Besvär från rygg, axlar och armar hos personer med förvärvade armamputationer eller dysmeli*. (Examensarbete i arbetsterapi Svensk C-uppsats), Karolinska institutet.
- Stuve, A. (2007a). Det vanskelige møtet med et annerledes utseende. In M. K. Haug (Ed.), *Et annerledes utseende. Historier og temaartikler* (pp. 67-71): TRS, SSD, Frambu.
- Stuve, A. (2007b). Mestring av livet med et annerledes utseende. In M. K. Haug (Ed.), *Et annerledes utseende. historiere og temaartikler* (pp. 105-108). Oslo: TRS, SSD og Frambu.
- Svartdal, F. (2018). Effektstørrelse. 11. juni. Retrieved from <https://snl.no/effektst%C3%B8rrelse>
- Sörbye, R. (1980). Myoelectric prosthetic fitting in young children. *Clin Orthop Relat Res*(148), 34-40.
- Sørensen, J., Davidsen, M., Gudex, C., Pedersen, K. M., & Brønnum-Hansen, H. (2009). Danish EQ-5D population norms. *Scandinavian Journal of Public Health*, 37(5), 467-474.
- The EuroQol Group. (1990). EuroQol - a new facility for the measurement of health-related quality of life. *Health Policy*, 16(3), 199-208. doi:[https://doi.org/10.1016/0168-8510\(90\)90421-9](https://doi.org/10.1016/0168-8510(90)90421-9)
- Vaglum, P., & Finset, A. (Eds.). (2007). *Helse, sykdom og atferd. Innføring i medisinske adferdsfag* (3.opplag 2012 ed.): Cappelen Akademisk Forlag.
- Van Hout, B., Janssen, M., Feng, Y.-S., Kohlmann, T., Busschbach, J., Golicki, D., . . . Pickard, A. S. (2012). Interim scoring for the EQ-5D-5L: mapping the EQ-5D-5L to EQ-5D-3L value sets. *Value in Health*, 15(5), 708-715.
- van Reenen, R., & Janssen, B. (2015). EQ-5D-5L User Guide.
- Varni, J., & Setoguchi, Y. (1991). Self-perceived physical appearance in children and adolescents with congenital/acquired limb deficiencies. *J Assoc Child Prosthet Orthot Clin*, 26(2), 56.
- Varni, J., Setoguchi, Y., Rappaport, L., & Talbot, D. (1991). Effects of stress, social support, and self-esteem on depression in children with limb deficiencies. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 72(13), 1053-1058.
- Varni, J. W., Rapoff, M. A., Waldron, S. A., Gragg, R. A., Bernstein, B. H., & Lindsley, C. B. (1996). Chronic pain and emotional distress in children and adolescents. *Journal of developmental and behavioral pediatrics: JDBP*, 17(3), 154-161.
- Vasluiian, E., van der Sluis, C. K., van Essen, A. J., Bergman, J. E., Dijkstra, P. U., Reinders-Messelink, H. A., & de Walle, H. E. (2013). Birth prevalence for congenital limb defects in the northern Netherlands: a 30-year population-based study. *BMC Musculoskelet Disord*, 14, 323. doi:10.1186/1471-2474-14-323

- Verdens helseorganisasjon, WHO. (2018). ICD-10 Den internasjonale statistiske klassifikasjonen av sykdommer og beslektede helseproblemer Retrieved from <https://finnkode.ehelse.no/#icd10/0/0/0/2600728>
- Vittersø, J. (2009). Satisfaction with life scale. *Tidsskrift for norsk psykologiforening*, 46, 757-758.
- Wahl, A., Klopstad, & Hanestad, B. R. (2004). *Måling av livskvalitet i klinisk praksis: En innføring*: Fagboklaget Vigmostad & Bjørke AS.
- Walseth, L. T., & Malterud, K. (2004). Salutogenese og empowerment i allmennmedisinsk perspektiv. *Tidsskrift for den Norske legeforening*, 124(nr. 1), 65-66.
- Wikipedia. (2018). Stigmatisering. Retrieved from <https://no.wikipedia.org/wiki/Stigmatisering>
- Wikipedia.no. (2018). NAV. Retrieved from <https://no.wikipedia.org/wiki/NAV>
- World Health Organization. (2018). International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF).
- Ylimainen, K., Nachemson, A., Sommerstein, K., Stocksélius, A., & Hermansson, L. N. (2010). Health-related quality of life in Swedish children and adolescents with limb reduction deficiency. *Acta Paediatr*, 99(10), 1550-1555. doi:10.1111/j.1651-2227.2010.01855.x
- Kunnskapsbasert faglig retningslinje for rehabilitering etter ervervet overekstremitetsamputasjon i Norge*, (2016).
- Østlie, K., Franklin, R. J., Skjeldal, O. H., Skrondal, A., & Magnus, P. (2011a). Musculoskeletal Pain and Overuse Syndromes in Adult Acquired Major Upper-Limb Amputees. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 92(12), 1967-1973.e1961. doi:10.1016/j.apmr.2011.06.026
- Østlie, K., Franklin, R. J., Skjeldal, O. H., Skrondal, A., & Magnus, P. (2011b). Musculoskeletal pain and overuse syndromes in adult acquired major upper-limb amputees. *Arch Phys Med Rehabil*, 92(12), 1967-1973 e1961. doi:10.1016/j.apmr.2011.06.026
- Østlie, K., Kjeldstadli, G., Jacobsen, E. F., Krokan, H., & Lyrstad, H. (2017). Bruk av armprotese. In N. k. f. s. diagnoser (Ed.), (1 ed.). Oslo, Norge: Nasjonalt fagnettverk for dysmeli.

Vedlegg

Vedlegg 1 Vedtak fra REK



Region:	Saksbehandler:	Telefon:	Vår dato:	Vår referanse:
REK sør-øst	Anne S. Kåvil	22845512	23.05.2014	2013/1320/REK sør-øst A
			Deres dato:	Deres referanse:
			13.05.2014	

Vår referanse må oppgis ved alle henvendelser

Trine Sand Kaastad
Postboks 4956 Nydalen

2013/1320 Armdysmelistudien

Forskningsansvarlig: Oslo universitetssykehus
Prosjektleder: Anne-Karin Vik

Vi viser til søknad om prosjektendring datert 13.05.2014 for ovennevnte forskningsprosjekt. Søknaden er behandlet av leder for REK sør-øst på fullmakt, med hjemmel i helseforskningsloven § 11.

Endringen innebærer at prosjektleder endres fra Anne-Karin Vik til Trine Sand Kaastad.

Informasjonsskrivene er revidert i henhold til komiteens merknader.

Komiteen tar til orientering av vilkår for godkjenning er oppfylt, og har ingen innvendinger til bytte av prosjektleder.

Vedtak

Komiteen godkjenner at prosjektet videreføres i samsvar med det som framgår av søknaden om prosjektendring og i samsvar med de bestemmelser som følger av helseforskningsloven med forskrifter.

Dersom det skal gjøres endringer i prosjektet i forhold til de opplysninger som er gitt i søknaden, må prosjektleder sende endringsmelding til REK.

Forskningsprosjektets data skal oppbevares forsvarlig, se personopplysningsforskriften kapittel 2, og Helsedirektoratets veileder for «Personvern og informasjonssikkerhet i forskningsprosjekter innenfor helse- og omsorgssektoren». Personidentifiserbare data slettes straks det ikke lenger er behov for dem og senest ved prosjektets avslutning.

Prosjektet skal sende sluttmelding, se helseforskningsloven § 12, senest 6 måneder etter at prosjektet er avsluttet.

Klageadgang

Du kan klage på komiteens vedtak, jf. forvaltningslovens § 28 flg. Klagen sendes til REK sør-øst. Klagefristen er tre uker fra du mottar dette brevet. Dersom vedtaket opprettholdes av REK sør-øst, sendes klagen videre til Den nasjonale forskningsetiske komité for medisin og helsefag for endelig vurdering.

Med vennlig hilsen

Knut Engedal
Professor dr. med.

Besøksadresse:
Gulhaugveien 1-3, 0484 Oslo

Telefon: 22845511
E-post: post@helseforskning.etikk.no
Web: <http://helseforskning.etikk.no/>

All post og e-post som inngår i sakbehandling, bes adressert til REK sør-øst og ikke til enkelte personer

Kindly address all mail and e-mails to the Regional Ethics Committee, REK sør-øst, not to individual staff

Vedlegg 2 Godkjenning av Mastergradsprosjekt

UiO  **Det medisinske fakultet**
Universitetet i Oslo

Prosjektansvarlig/veileder: Professor Inger Holm
Masterstudent: Anne-Karin Vik

Dato: 17.10.2016
Deres ref.:
Vår ref.: 2016/11878

Unntatt offentlighet: offl § 13 jf fvl § 13

Angående søknad om godkjenning av mastergradsprosjekt

Prosjekt: Funksjon og livskvalitet hos voksne med reduksjonsdeformitet i armene. En tverrsnittsstudie

Vi viser til søknad datert 9.9.2016 om godkjenning av ovennevnte forskningsprosjekt som masteroppgave ved Avdeling for helsefag, Universitetet i Oslo. Søknaden er vurdert av kvalitetssikringsutvalget ved Avdeling for helsefag i møte 12.10.2016.

Faglig vurdering

Prosjektets hensikt er å undersøke funksjon og livskvalitet hos voksne personer med medfødt reduksjonsdeformitet i armene og sammenligne funnene med en gruppe friske personer. Tema vurderes som relevant for en masteroppgave i helsefag. Komiteen er blitt informert om at datainnsamling og analyse av data er gjennomført, og komiteen har derfor unnlatt å gi en vurdering av prosjektet da det uansett ikke er mulig å gjøre endringer nå. Komiteen ser det som uheldig at masterstudent ikke har fulgt kravene ved vårt masterstudium om at alle masterstudenter skal inneha en godkjenning av masterprosjektet fra kvalitetssikringsutvalget før oppstart av masterprosjekt. Informasjon om dette ligger på våre nettsider og er gitt på Forskningsforberedende kurs.

Forskningsetisk vurdering

Det foreligger godkjenning fra REK og Personvernombud ved Oslo universitetssykehus.

Vedtak

Masterprosjektet godkjennes dersom det er gjennomført slik det er anført i søknaden og prosjektbeskrivelsen og de bestemmelser som følger av helseforskningsloven med forskrifter, og at komiteens anmerkninger tas til følge.

Veiledningsavtalen godkjennes.

Men for å få prosjektet formelt i orden må masterstudent sørge for at prosjektleder undertegner søknadsskjema og returnere det til studiestedet slik at det blir også en formell avtale om at



Institutt for helse og samfunn

Avdeling for helsefag
Postadr.: Postboks 1089 Blindern, 0317 Oslo
Besøksadr.: Forskningsveien 3a, Harald
Schjelderups hus, inngang 2

Telefon: 22 84 33 78
Telefaks: 22 84 33 83
postmottak@medisin.uio.no
www.med.uio.no/helsam
Org.nr.: 971 035 854

masterstudent og prosjektleder/veileder har en omforent forståelse av hva masteroppgaven skal handle om.

Lykke til med prosjektet.

Med hilsen

Kari Nyheim Solbrække
programleder, førsteamanuensis

Anne Marit Mengshoel
Leder, kvalitetssikringsutvalget/professor

Dokumentet er elektronisk produsert og godkjent ved UiO i tråd med UiOs reglement for elektronisk godkjenning.

UiO • Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

GODKJENNING AV MASTERGRADSPROSJEKT

Ikke fremleggelsespliktig REK	UA
Fremleggelsespliktig REK	Oppgi REK-nr. 2013/1320 Aredysmelistudien
Fremleggelse for personvernombud/annen lokal instans	Ja. Rutine på OUS.

1. Generelle opplysninger

a. Prosjekttittel

Prosjekttittel	Funksjon og livskvalitet hos voksne med reduksjonsdeformitet i armene. En tverrsnittstudie.
----------------	---

b. Forskningsansvarlig/veileder

Navn	Inger Holm
Akademisk grad	PT, PhD, MHA
Klinisk kompetanse	
Stilling	Forsker / professor
Hovedarbeidssted	Forskningsenheten, Ortopedisk klinikk, Oslo Universitetssykehus / Seksjon for helsefag HELSAM, Med fak, UiO
Arbeidsadresse	Ullevål sykehus, Kirkeveien 166
Postnummer/sted	
Telefon	Til:
Mobiltelefon	48234373
E-postadresse	Inger.holm@medisin.uio.no

c. Prosjektopplysninger

Initiativtaker til prosjektet	Masterstudent
Samarbeid med utlandet	Nei.
Mastergradsprosjekt/ doktorgradsprosjekt	Mastergradsprosjekt
Del av forskningsprogram	Nei
Relatert forskningsprosjekt	Ja. «En undersøkelse av livskvalitet, belastningsplager og protesebruk hos voksne med reduksjonsdeformitet i armene.» REK-nr.: 2013/1320 Bruker dataene fra denne studien

d. Masterstudent

Navn	Anne-Karin Vik
Stilling	Koordinator for Nasjonalt fagnettverk for dysmeli
Institusjon	Oslo universitetssykehus

UiO • Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

Akademisk grad	Bachelor of Science
----------------	---------------------

2. Prosjektopplysninger

a. Formål

<p>Prosjektomtale (Allment forståelig og kortfattet beskrivelse av bakgrunn og formål med studien. 1000 tegn)</p>	<p>Det fins begrenset viten om funksjon, livskvalitet og protesebruk blant voksne med reduksjonsdeformitet i en eller begge armene i Norge.</p> <p>Mange, både pasienter, pårørende og fagpersoner, er bekymret for fremtidige fysiske og psykiske belastningsplager og smerter som følge av en asymmetrisk kropp og annerledes utseende. Det hevdes i nordiske fagmiljøer at daglig bruk av håndprotese kan forebygge belastningsplager i større grad enn om man ikke bruker protese (Hermansson, 2004). Både fysiske plager og bekymring for å få dem er noe som kan tenkes å påvirke funksjonen og livskvaliteten til personer med reduksjonsdeformiteter negativt.</p> <p>Denne studiens formål er å kartlegge funksjon og livskvalitet blant voksne personer med medfødt reduksjonsdeformitet i armene (RDA), sammenligne denne pasientgruppen med den generelle befolkningen. Vi vil også evaluere om det er forskjeller i funksjon og livskvalitet mellom dem som bruker/ikke bruker protese.</p> <p>Studien vil kunne bidra til et bedre kunnskapgrunnlag for informasjon til og behandling av personer med reduksjonsdeformiteter.</p>
Legemiddelutprøving	Nei

b. Forskningsdata

Registerdata	Ja. Uttrekk fra Data- og analyseavdelingen på OUS. Uttrekk av tilfeldig utvalg fra Folkeregisteret.
Nye helseopplysninger	Diagnosekoder korrigeres ved gjennomgang av journal, egenrapporterte opplysninger og klinisk undersøkelse. Egenrapporterte og subjektive opplysninger om helserelatert livskvalitet, tilfredshet med livet, fysisk funksjon/dysfunksjon og symptomer, samt bruk av protese (hyppighet/varighet/type) hentes ut ved hjelp av et egenutviklet spørreskjema der valide og reliable måleinstrumenter inngår (EQ5D, SWLS og Quick-DASH).
Humant biologisk materiale	Nei.

c. Forskningsmetode

Metode for analysering av data	Statistiske (kvantitative) analysemetoder. Beskrive og sammenlikne to eller flere grupper (H0= Gruppene er like). Kategoriske variabler: Tabeller, andeler, «Tabellanalyser» Kontinuerlige variabler: t-test/enveis Anova (v/normalfordelt utvalg) eller MWW test/KW (v/ikke normalfordelt utvalg)
--------------------------------	---

UiO : Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

Intervensjon	Nei
Klinisk undersøkelse	Ja
Spørreskjema	Ja
	Nei
Observasjon	Nei
Faglig og vitenskapelig begrunnelse for valg av metode	<p>Vi ønsker å sammenligne selvrapportert funksjon og livskvalitet hos et utvalg personer med medfødt mangel på armene med et tilfeldig utvalg av befolkningen.</p> <p>Egenrapportering/spørreskjema gir subjektiv informasjon om funksjon og livskvalitet.</p> <p>Spørreskjema undersøkelse De selekterte individene med Q71.0-9 diagnose tilskrives og inviteres til å svare på spørsmål om helse, helserelatert livskvalitet, tilfredshet med livet, fysisk aktivitet og deltagelse, samt spørsmål rettet spesifikt mot reduksjonsdeformitet og protesebruk. Skjemaene vi vil bruke er henholdsvis EQ-5D-5L, SWLS og Quick-DASH, enkle, etablerte og validerte instrumenter. For å fange opp gruppens spesielle helse og problemstillinger vil i tillegg et egenutviklet spørreskjema benyttes. De validerte skalaene er innlemmet i det egenutviklede spørreskjemaet som sendes til pasientene.</p> <p>Utvalget med Q71 diagnose tilskrives med Informasjonsskriv og inviteres til å delta ved å returnere underskrevet samtykkeerklæring og utfylt spørreskjema som er vedlagt brevet (vedlegg 4).</p> <p>Kontrollgruppe fra den generelle befolkningen En kontrollgruppe trekkes, tilfeldig utvalgt fra folkerregisteret innen aldersspennet. Vi velger ikke å matche mht demografiske faktorer som kjønn og alder, da vi tenker at det er kompliserende og binder opp data. Vi finner det bedre å justere etterpå i en regresjonsanalyse. Vi ønsker et styrkeforhold på 1:1 og forventer en svarprosent $\geq 30\%$. Det skal derfor trekkes tre kontrollpersoner fra Folkerregisteret for hver inkluderte deltager for å ha god margin til vårt ønskede styrkeforhold. Navn, adresse og fødselsdato hentes ut.</p> <p>De selekterte kontrollkandidatene kontaktes pr brev med informasjonsskriv og inviteres til å delta som kontrollpersoner i prosjektet ved å returnere underskrevet samtykkeerklæring og utfylt spørreskjema (vedlegg 5). Kontrollpersonene inviteres til å svare på spørsmål om helse, helserelatert livskvalitet, tilfredshet med livet, fysisk aktivitet og deltagelse (EQ5D, SWLS og Quick - DASH), samme spørreskjema som de inkluderte med unntak av spørsmål rettet spesifikt mot reduksjonsdeformitet og protesebruk.</p>

d. Utvalg

Allmennbefolkning	Ja
Bare ett kjønn	Nei. Diagnosen rammer begge kjønn.
Pasienter/klienter	Ja. For å studere våre forskningsspørsmål på individnivå selekteres et utvalg av personer med reduksjonsdeformitet i armene (ICD10 diagnosekodene Q71.0-9) ved Oslo universitetssykehus (OUS). Oslo universitetssykehus har flest pasienter med reduksjonsdeformitet i Norge og har representasjon fra flere helseregioner.

UiO : Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

Begrunn valg av pasientgruppe	Tidligere forskning har ofte sett på både amputerte og medfødte mangler sammen, eller bare amputerte. Vi ønsker nå å undersøke kun personer med medfødt mangel, fordi vi antar at det er forskjell på medfødt tilstand og erhvervet tilstand med tanke på funksjon og livskvalitet. Vi vil i senere forskning kunne sammenlikne personer med medfødte tilstander med personer med erhvervet amputasjon.
Kontrollgruppe(r)	Jå. Hentet ut fra Folkeregisteret
Begrunn valg av kontrollgruppe(r)	Vi ønsker å sammenligne selvrapporert funksjon og livskvalitet hos et utvalg personer med medfødt mangel på armene med et tilfeldig utvalg av befolkningen. Vi vil se om vår gruppe skiller seg fra den generelle befolkningen.
Personer med mangelfull samtykkekompetanse	Nei
Voksne	For å studere våre forskningsoppgaver på individnivå selekteres et utvalg av personer ≥ 18 år med reduksjonsdeformitet i armene (diagnosekodene Q71.0-9) ved Oslo universitetssykehus (OUS) som har flest pasienter med denne tilstanden tilknyttet seg.
Mindreårige	Nei
Andre personer i en sårbar eller avhengig situasjon	Reduksjonsdeformitet er regnet som en sjelden diagnose og gruppen vi ønsker å undersøke er forholdsvis liten. Det er derfor viktig å ta hensyn til at enkelte kan være sårbare i forhold til gjenkjenning. Vi anser likevel sannsynligheten for at det skal skje som liten på Q71 nivå da det blant de med reduksjonsdeformiteter er flest personer som har mangel i arm. Det er mindre fare for at disse personene i denne studien skal kunne identifiseres basert på sin deformerte ekstremitet. Der det i undergruppene er færre enn 5 individer vil de kun inngå i hovedgruppen Q71.0-3 eller Q71.4-9.
Spesifiser hvilke personer	Se over
Begrunn hvorfor disse personene skal inkluderes	Se over
Fostre	Nei.

e. Utvalgsstørrelse

Redegjør og begrunn antall deltakere	<p>Pasienter/klienter Voksne personer med overlevelse til ≥ 18 år (pr 31.06.13) med reduksjonsdeformitet kun i arm, som mangler hele eller deler av en arm, eller begge armene, som følge av en medfødt feildannelse og som ikke er ledd i syndrom eller annen sammensatt tilstand. Det vil si ICD 10 diagnosekodene Q71.0-9. Hvorvidt det er en unilateral eller bilateral reduksjonsdeformitet går ikke frem av diagnosekodene. Vi velger derfor å inkludere alle med reduksjonsdeformitet på armene. Pasienter som i tillegg har reduksjonsdeformitet på underekstremitetene vil ekskluderes fra undersøkelsen.</p> <p>Antall forskningsdeltakere Korrigert utvalgsstørrelse v/gjennomgang av journal N=192 Antall forskningsdeltakere med samtykke N=109</p> <p>Kontrollgruppe Vi trekker en kontrollgruppe, tilfeldig utvalgt fra folkeregisteret innen aldersspennet. Antall kontroller skal være 3 ganger så mange som antall pasienter.</p>
--------------------------------------	--

UiO : Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

3. Informasjon, samtykke og personvern

Ikke relevant	
Samtykke foreligger	Nei
Samtykke innhentes	Ja.
For hvilke data skal samtykke innhentes?	Alle
Spesifikt informert aktivt skriftlig samtykke	Ja.
Redegjør for tiltak for å sikre et informert og fritt samtykke og begrunn eventuelle avvik fra anbefalte prosedyrer	<p>Beskrivelse av rekrutteringsprosedyre</p> <p>De som ønskes rekruttert til studien, pasienter med ICD 10 kode Q71.0-9 på OUS, vil bli tilskrevet med informasjon om studien, samtykkeskjema og spørreskjema for å sikre at samtykket er informert, frivillig, uttrykkelig og dokumenterbart. Samtykket bygger på spesifikk informasjon om forskningsprosjektet.</p> <p>Personer som trekkes ut til kontrollgruppen vil tilskrives med eget informasjonsbrev og bli bedt om å fylle ut informert samtykke sammen med spørreskjemaet slik som pasientgruppen.</p> <p>De som ønskes til studien vil få 3 ukers betenkningstid. Ved manglende tilbakemelding etter 3 uker tilskrives de på nytt.</p> <p>Samtykket de bes å undertegne er basert på helseforskningsloven § 13. Alle deltakere i undersøkelsen har til enhver tid rett til å trekke seg fra undersøkelsen de har gitt opplysninger til. Deltakere kan også be om at opplysningene de har gitt skal slettes.</p>
Fra pårørende/foreldre i tillegg til deltaker/mindreårig	UA

4. Forskningsetiske utfordringer ved prosjektet

a. Fordeler

For den enkelte person i utvalget	Ja
Angi hvilke fordeler	Den enkelte prosjektdeltaker som trekkes ut til poliklinisk undersøkelse vil få tilbud om oppfølging i dysmeliteamet eller henvisning til annen aktuell instans, dersom behov for det avdekkes i undersøkelsen.
Grupper av personer	Ja
Angi hvilke grupper	Personer med reduksjonsdeformitet i armen og fagmiljøer som yter tjenestetilbud til dem vil ha nytte av at kunnskapsgrunnlaget for habilitering styrkes.
Angi hvilke fordeler	Pasienter vil få forskningsbaserte råd og anbefalinger med hensyn til funksjon og livskvalitet og protesebruk. Helsepersonell blir sikrere i hvilke informasjon de skal gi.
Samfunnet	Ja
Angi hvilke fordeler	Mårettet og kunnskapsbasert behandling og oppfølging vil bidra til optimal funksjon hos denne pasientgruppen som har behov for livslang oppfølging. Dette

UiO : Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

	vil være samfunnsøkonomisk gunstig blant annet gjennom mulighet for økt arbeidsdeltakelse på tross av deres handicap, og gjennom at forebygging av tilleggspilger vil kunne redusere sykefravær. Videre vil kostbare behandlingstiltak kunne settes i verk bare der de er nødvendige og hensiktsmessige.
Vitenskapen	Ja
Angi hvilke fordeler	Det er som det fremgår ovenfor lite forskning på dette området og det vil være av interesse blant fagfolk innen feltet å få undersøkt funksjon og livskvalitet og hvorvidt disse faktorene påvirkes av protesebbruk.

b. Ulemper

For den enkelte person i utvalget	Ja
Angi hvilke ulemper	Den enkelte prosjektdeltaker Tidsbruk og kostnader (tagt arbeidsfortjeneste, reisekostnader) Deltagelse i undersøkelsen kan betraktes som en intervensjon.
Grupper av personer	Nei
Angi hvilke grupper	
Angi hvilke ulemper	
Samfunn og miljø	Nei

c. Tiltak

Redegjør for særlige tiltak for å ivareta og beskytte deltakere i forskningsprosjektet	Betale reise inntil kr 700 i gjennomsnitt. Informere om studien. Sørge for en kontaktperson når de er til undersøkelse på sykehuset. Gi tilbud om oppfølging i dysmelittarmet eller henvisning til annen instans hvis behov for behandling dukker opp.
--	---

d. Forsvarlighet

Redegjør for din avveining mellom fordeler og ulemper og gi din begrunnelse for hvorfor du mener det er forsvarlig å gjennomføre prosjektet	Det ansees som forsvarlig og nødvendig å gjennomføre prosjektet. Reduksjonsdeformitet er regnet som en sjelden diagnose og gruppen vi ønsker å undersøke er forholdsvis liten. Det er derfor viktig å ta hensyn til at enkelte kan være sårbare i forhold til gjenkjenning. Vi anser likevel sannsynligheten for at det skal skje som liten på Q71 nivå da det blant de med reduksjonsdeformiteter er flest personer som har mangel i arm. Det er mindre fare for at disse personene i denne studien skal kunne identifiseres basert på sin deformte ekstremitet. Der det i undergruppene er færre enn 5 individer vil de kun inngå i hovedgruppen Q 71.0-3 eller Q71.4-9.
---	--

5. Sikkerhet, interesser og publisering

a. Personidentifiserbare opplysninger

Opplysninger som registreres i prosjektet er indirekte personidentifiserbare (avidentifiserte eller systematisk reidentifiserte)	Personidentifiserbar informasjon (navn, adresse, personnummer) er erstattet med et ID-nr. Listene oppbevares adskilt i separate skap.
--	---

UiO : Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

Navn, adresse og eller fødselsdato	Ja
11-sifret fødselsnummer	Ja
Opplysninger om tredjeperson	Nei

b. Internkontroll og sikkerhet

PC tilhørende virksomheten i nettverkssystem tilknyttet internett	Ja, OUS har eget område hvor alle forskningsdata lagres. Området overvåkes av Personvernombudet ved OUS
PC uten tilknytning til internett	Nei
Manuelt/papir	Ja
Videopptak/fotografi/lydpptak	Nei
Koblingsnøkkel og opplysninger oppbevares atskilt fra hverandre	Ja
Passordbeskyttet oppbevaring	Ja
Innelåst oppbevaring	Ja
Redegjør nærmere for hvordan personidentifiserbare opplysninger er beskyttet mot innsyn fra uvedkommende	Passord beskyttede filer Oppbevaring på PC område for sensitivt materiale Låsbar skap. Koblingsnøkkel og opplysninger oppbevares adskilt i hver sine skap
Andre sikringstiltak	

c. Forsikring for forskningsdeltakere

Forsikring anses nødvendig	Nei
----------------------------	-----

d. Vurdering av andre instanser

Andre	Ja/Nei
Hvilke(n) institusjoner(er)/instans(er)?	Regional etisk komite

e. Interesser

Finansieringskilder	Sophies Minde Ortopedi AS, Oslo universitetssykehus, Nasjonalt fagnettverk for dysmeli
Godtgjøring til institusjon	Lønn til fysioterapeut som deltar i klinisk undersøkelse. Lønn til lege utover 20% stilling.
Honorar veileder/-masterstudent	Nei
Kompensasjon for forskningsdeltakere	Reise- og oppholdsutgifter
Eventuelle interessekonflikter for veileder/-masterstudent	

f. Publisering

Redegjør for hvordan resultatene skal gjøres offentlig tilgjengelig	Vi tar sikte på at resultatene av studiene skal publiseres i journal <i>Disability and Rehabilitation</i> .
---	---

UiO : Institutt for helse og samfunn

Det medisinske fakultet

g. Offentlig innsyn

Søkes det om unntak fra offentlig innsyn i dokumenter?	Ja
--	----

h. Tidsramme

Prosjektstart dato	2015
Prosjektslutt dato	2017
Etter prosjektslutt skal datamaterialet oppbevares sammen med personidentifikasjon	Nei
Redegger nærmere for håndtering av data etter prosjektslutt	Data oppbevares i låsbare skap og på område for sensitiv informasjon på PC. Datamaterialet slettes i utgangen av 2020.

6. Vedlegg

1. Prosjektsbeskrivelse (forskningsplan)
2. Fremdriftsplan
3. Veiledningsavtale med CV for ekstern forskningsansvarlig/veileder som viser veileder og undervisningserfaring på masternivå og publisering siste 5 år
4. Informasjonsskriv, spørreskjema og samtykkeskjema til deltakere
5. Informasjonsskriv, spørreskjema og samtykkeskjema til kontrollene
6. Evt. REK-forhåndsvurdering/godkjenning

7. Ansvarserklæring og underskrifter

- Jeg erklærer at prosjektet vil bli gjennomført i henhold til gjeldende lover, forskrifter og retningslinjer.
- Jeg erklærer at prosjektet vil bli gjennomført i samsvar med opplysninger gitt i denne søknaden.
- Jeg erklærer at prosjektet vil bli gjennomført i samsvar med eventuelle vilkår for godkjenning gitt av REK eller andre instanser.

9.09.16	9.09.16
Inger Holm (sign)	Anne-Karin Vik
Dato –Forskningsansvarlig/veileder	Dato – Masterstudent

3. 11. 2017

Anne S. Waasbøl
Prosjektleder
Side 8 av 8

 Oslo universitetssykehus
Ortopedisk avdeling
Overlege dr.med.
Tine Sand Kjaestad
Tlf: 2103 068

Vedlegg 3 Informasjonsskriv pasienter



Oslo universitetssykehus HF
Rikshospitalet
Postboks 4950 Nydalen
0424 Oslo
Sentralbord: 02770

20. januar 2015

Klinikk for kirurgi og neurofag
Ortopedisk avdeling
Seksjon for forskning og kompetansesenter

Forespørsel om deltakelse

i studien:

”En undersøkelse av livskvalitet, belastningsplager og protesebruk hos voksne med reduksjonsdeformitet i armene (RDA)”

Hensikten med studien

Ortopedisk avdeling ved Oslo universitetssykehus, Rikshospitalet (tidligere Sophies Minde Ortopedisk Hospital og Kronprinsesse Marthas Institutt) gjennomfører en kvalitetsundersøkelse med fokus på livskvalitet, muskelskjelettplager og protesebruk hos personer med reduksjonsdeformitet i en eller begge armene (heretter forkortet til RDA). RDA er en type dysmeli der deler av armen(e) mangler.

Formålet med studien er å kartlegge livskvalitet og forekomst av muskelskjelettplager blant voksne personer med RDA, og å sammenligne disse parametrene hos denne gruppen med den generelle befolkningen. Vi ønsker også å finne ut om eventuelle plager kan ses i sammenheng med bruk eller ikke-bruk av protese. Denne kunnskapen vil bli brukt til å forbedre tilbudet til personer med RDA innen helsevesenet.

Grunnen til at du blir forespurt

Du er en av 364 personer som er født med reduksjonsdeformitet i minst en arm som nå får denne forespørselen om å delta i studien. De som blir spurt har vært eller er i kontakt med Oslo universitetssykehus, Rikshospitalet og/eller vår avdeling på Sophies Minde Ortopedi, og er nå 18 år eller eldre.

Du bestemmer selv

Det er frivillig å delta i studien. Dersom du velger å ikke delta, trenger du ikke å oppgi noen grunn til det, og det vil ikke få noen behandlingsmessige konsekvenser for deg nå eller i fremtiden.

Hva vil det bety for deg?

Hvis du sier ja til å delta i studien betyr det at du skal fylle ut det vedlagte spørreskjemaet. Spørreskjemaet kartlegger blant annet helse, livskvalitet og smerter. Det vil ta ca 20 minutter å fylle det ut. Du returnerer det til oss i den ferdig frankerte svarkonvolutten.

En del av de som samtykker til deltakelse i studien vil også bli trukket ut til en poliklinisk konsultasjon ved Ortopedisk poliklinikk ved Rikshospitalet. Ved denne konsultasjonen vil lege og fysioterapeut foreta en fysisk undersøkelse av deg for å kartlegge blant annet bevegelighet, eventuelle smerter og belastningsplager. Oppholdet på sykehuset vil vare i ca 1 time. Tid for undersøkelsen vil bli avtalt med den enkelte. Du vil få dekket reisen. Dersom det viser seg at det er behov for videre oppfølging, vil du bli henvist videre til et dysmeliteam eller annen relevant instans. Du kan si nei til denne undersøkelsen selv om du fyller ut spørreskjemaet.



Slik ivaretas ditt personvern

Med hjemmel i helseforskningsloven er prosjektet forhåndsgodkjent av Personvernombudet for forskning ved Oslo universitetssykehus og av Regional komité for medisinsk og helsefaglig forskningsetikk Øst-Norge (REK sør-øst). Data som hentes ut fra din pasientjournal vil være fødselsnummer og aktuelle diagnosekoder. Forskningsdata lagres på et eget, sikret datasystem ved Oslo universitetssykehus. Alle opplysningene vil bli behandlet konfidensielt og avidentifisert. Det vil si at en kode knytter deg til dine opplysninger gjennom en personnummerliste. Prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik og prosjektleder Trine Sand Kaastad har adgang til personnummerlisten og er de eneste som kan finne tilbake til deg. De har taushetsplikt. Etter studien vil opplysningene bli anonymisert (ved at kodene fjernes fra databasen). Dette vil skje senest 31.12. 2020.

Du har rett til å få innsyn i hvilke opplysninger som er registrert om deg. Du har videre rett til å få korrigert eventuelle feil i de opplysningene vi har registrert. Du kan på et hvilket som helst tidspunkt trekke deg fra studien uten å måtte begrunne dette nærmere. Hvis du trekker deg fra studien, kan du kreve å få slettet opplysninger vi har registrert. Du kan ikke få slettet opplysninger dersom de er anonymisert eller dersom opplysningene allerede har inngått i et vitenskapelig arbeid.

Resultatene fra studien vil bli publisert som gruppedata, uten at den enkelte kan gjenkjennes.

Opplysninger om din RDA, eventuelle belastningsplager og protesebruk som blir hentet inn ved den polikliniske kontrollen, vil bli ført inn i din journal, og kopi kan, dersom du ønsker det, sendes til din fastlege. Disse journalopplysningene vil ikke bli slettet ved prosjektslutt, men er omfattet av den samme taushetsplikten som annen journalinformasjon.

Ekstern vurdering av prosjektet

Regional komité for medisinsk og helsefaglig forskningsetikk, Øst-Norge (REK sør-øst), har vurdert prosjektet, og har ingen innvendinger mot at det gjennomføres. REK har også gitt dispensasjon fra taushetsplikten for at prosjektleder skal kunne innhente aktuelle diagnoser og personnummer i vårt register på OUS.

Mer informasjon

Hvis du har spørsmål om studien kan du kontakte prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik på telefon 23076097 / 98679003.

Problemer med spørreskjemaet?

Dersom noen av spørsmålene i spørreskjemaet er uklare, kan du få hjelp ved å ringe prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik på et av telefonnumrene ovenfor.

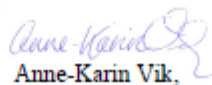
Slik deltar du i studien

Vedlagt dette brevet ligger et spørreskjema og en samtykkeerklæring. Hvis du ønsker å delta i studien, ber vi deg returnere underskrevet samtykkeerklæring og utfylt spørreskjema til oss i vedlagte frankerte svarkonvolutt.

Vennlig hilsen,



Trine Sand Kaastad
Prosjektleder
Overlege Dr.med., Dysmeliteamet
Oslo universitetssykehus HF



Anne-Karin Vik,
Prosjektmedarbeider
Koordinator, Nasjonalt fagnettverk for dysmeli
Oslo universitetssykehus HF

Vedlegg 4 Samtykke pasienter

Samtykke

til deltakelse i "RDA- studien":

"En undersøkelse av livskvalitet, muskelskjelettplager og protesebruk hos voksne med reduksjonsdeformitet i armene (rda)"

Jeg bekrefter at jeg har mottatt skriftlig informasjon om studien, har fått anledning til å innhente den informasjon jeg har hatt behov for, og er villig til å delta i prosjektet.

Det innebærer at jeg er villig til å:

- Svare på spørreskjema (sett kryss)
- Delta på poliklinisk undersøkelse hos lege og fysioterapeut på Oslo universitetssykehus, dersom jeg blir trukket ut. (sett kryss)

(Signert av prosjektdeltaker, dato)

Navn:.....(store bokstaver)

Adresse:.....(store bokstaver)

Jeg bekrefter med dette at jeg kan kontaktes på telefon:

Telefon/Mob:.....

Jeg har svart innen 3 uker fra brevetts dato og ønsker å være med i trekningen av et Apple iPad Air 2 nettbrett 16 GB WiFi (Sett kryss).

Jeg bekrefter å ha gitt informasjon om studien:



(Signert av Anne-Karin Vik prosjektmedarbeider 20.01.2015, på vegne av Prosjektleder Trine Sand Kaastad)

Vedlegg 5 Spørreskjema pasienter

Spørreskjema

En undersøkelse av belastningsplager, livskvalitet og protesebruk hos voksne med reduksjonsdeformitet i armene (RDA).

Vær vennlig å svare på alle spørsmålene så godt du kan ved å sette kryss i relevant boks eller fylle ut på linjen. Dersom det er noen spørsmål du ikke ønsker å svare på, så hopp over dem.

Vi ønsker uansett at du sender spørreskjemaet tilbake til oss.

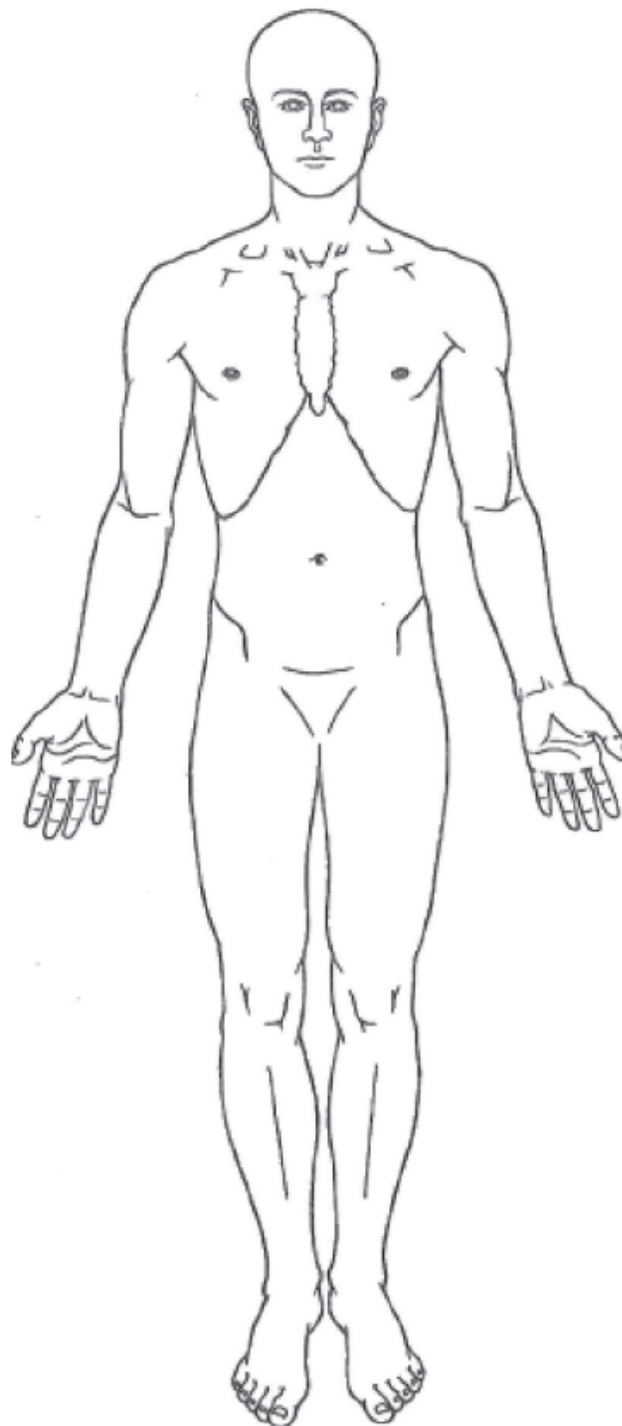
Dersom noe er uklart kan du få hjelp ved å kontakte prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik på telefon 23 07 60 97/986 79 003.

I. BAKGRUNNSOPPLYSNINGER:

ID-nr: _____

- a) Din alder: _____ år Kvinne Mann
- b) Boforhold: Gift/Samboer Bor alene Bor sammen med andre enn ektefelle/samboer (for eksempel barn)
- Hvor mange i husstanden? _____
- c) Er du i lønnet arbeid? Ja Nei
Hvis ja, vil du beskrive ditt arbeid som:
 Tungt manuelt (for eksempel gårdbruker, håndverker)
 Lett manuelt (for eksempel butikkarbeider, ansatt i barnehage)
 Kontorarbeid
- d) Er du i full jobb i dag? D.v.s. 100%
 Ja
 Nei, deltidsarbeid. Angi % av full stilling. _____ %
- e) Er du student/skoleelev i dag: Ja Nei
- f) Hva er den høyeste utdannelsen du har fullført?
 Ingen utdanning/skolegang
 9/10årig grunnskole
 Videregående yrkesfag
 3-årig videregående allmennfag/gymnas
 Høgskole
 Universitet
 Annen utdanning
- g) Er du sykmeldt nå? Ja Nei
Hvis ja, i hvilken prosent? _____ %
Hvor lenge har du vært sykmeldt? _____ måneder
Hva er grunnen til at du er sykmeldt? (Flere kryss er mulig)
 Fysiske belastningsplager, spesifiser: hånd arm skulder nakke brystrygg korsrygg hofte knær
 Psykiske plager
 Annet
- h) Er du på arbeidsavklaringspenger? Ja Nei
- i) Er du uføretrygdet? Ja Nei
Hvis ja, i hvilken prosent? _____ %
Hvor lenge har du vært uføretrygdet?: _____ år _____ måneder
Hva er grunnen til at du er uføretrygdet? (Flere kryss er mulig)
 Fysiske belastningsplager: hånd arm skulder nakke brystrygg korsrygg hofte knær
 Psykiske plager Annet

2. MERK AV NIVÅ FOR DYSMELIEN OG TEGN DYSMELIEN SÅ GODT DU KAN PÅ FIGUREN:



3. SPØRSMÅL OM PROTESE(R):

- a) Har du noen gang fått tilpasset protese(r)? Ja Nei. Hvis nei gå til spørsmål 4
- b) Hvor gammel var du ved første protesetilpasning? _____ år
- c) Hvilken type protese(r) har du fått tilpasset? (Flere kryss mulig)
- Kosmetisk
 - Mekanisk protese
 - Myoelektrisk protese
 - Hybridprotese (feks mekanisk albue og elektrisk hånd), beskriv: _____
- d) Bruker du protese(r) i dag? Ja Nei
Hvis nei: Hvor gammel var du da du sluttet? _____ år.
Hvorfor sluttet du? (beskriv) _____
- e) Hvis du bruker protese nå, hvilke(n) type bruker du?(Flere kryss mulig)
- Kosmetisk
 - Mekanisk protese
 - Myoelektrisk protese
 - Hybridprotese
- f) I hvilke situasjoner bruker du protese? (Flere kryss mulig)
- Uansett situasjon på dagtid
 - Lønnet arbeid
 - Husarbeid
 - Fritid (beskriv hvilke aktiviteter. For eksempel: sport/idrett, sosialt samvær): _____
- g) Hva er grunnen til at du bruker protese? (beskriv): _____
- h) Hvor ofte bruker du protese?:
- Daglig. Det vil si: 0-4 timer 5-8 timer mer enn 8 timer
 - 1-6 ganger i uka
 - 1-4 ganger i måneden
 - Sjeldnere

4. SPØRSMÅL OM ANNEN TYPE REDSKAP SOM GIR ET GREP (SPESIALGREP):

- a) Har du noen gang fått tilpasset spesialgrep? Ja Nei. Hvis nei gå til spørsmål 5
- b) Hvor gammel var du ved første grepstilpasning? _____ år
- c) Hvilke(n) type(r) spesialgrep har du fått tilpasset? Beskriv _____
- d) Bruker du spesialgrep i dag? Nei Ja. Hvis ja, beskriv type spesialgrep: _____
- e) I hvilke situasjoner bruker du et spesialgrep? (Flere kryss mulig)
- Uansett situasjon på dagtid
 - Lønnet arbeid
 - Husarbeid
 - Fritid (beskriv hvilke aktiviteter. For eksempel: sport/idrett, sosialt samvær): _____
- f) Hvor ofte bruker du et spesialgrep? Daglig 1-6 ganger i uka 1-4 ganger i måneden Sjeldnere

5. SPØRSMÅL OM FYSISK AKTIVITET

Hvor ofte trener du? (Med trening menes fysisk aktivitet minimum en halv time der du blir svett og andpusten. For eksempel jogging, trening i helsestudio, sykling, dans)

- Trener ikke
- Mindre enn 1 gang i uka
- 1 gang i uka
- 2 ganger i uka
- 3 ganger i uka
- Mer enn 3 ganger i uka

6. SPØRSMÅL OM FYSISKE PLAGER OG SMERTER

a) Har du i løpet av de siste 12 månedene hatt smerter i nakken eller øvre del av ryggen?

- Ja, venstre side
- Ja, høyre side
- Nei. Gå til spørsmål 6 d

b) Hvor ofte opplever du disse smertene?

<i>Venstre side</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Minst en gang i året	<input type="checkbox"/> Minst en gang i året
<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden	<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden
<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka	<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka
<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen	<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen
<input type="checkbox"/> Hele tiden	<input type="checkbox"/> Hele tiden

c) Hvor plagsomme er disse smertene?

<i>Venstre side:</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme	<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme
<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter

d) Har du de siste 12 månedene hatt smerter i korsryggen?

- Ja, venstre side
- Ja, høyre side
- Nei. Gå videre til spørsmål 6 g

e) Hvor ofte opplever du disse smertene?

<i>Venstre side</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Minst en gang i året	<input type="checkbox"/> Minst en gang i året
<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden	<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden
<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka	<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka
<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen	<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen
<input type="checkbox"/> Hele tiden	<input type="checkbox"/> Hele tiden

f) Hvor plagsomme er disse smertene i korsryggen?

<i>Venstre side :</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Smarter, men ikke plagsomme	<input type="checkbox"/> Smarter, men ikke plagsomme
<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter

g) Har du de siste 12 månedene hatt smerter i skuldrene?

- Ja, *venstre* side
 Ja, *høyre* side
 Nei. Hvis nei, gå videre til spørsmål 6 j

h) Hvor ofte opplever du disse smertene i skuldrene?

<i>Venstre skulder</i>	<i>Høyre skulder:</i>
<input type="checkbox"/> Minst en gang i året	<input type="checkbox"/> Minst en gang i året
<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden	<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden
<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka	<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka
<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen	<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen
<input type="checkbox"/> Hele tiden	<input type="checkbox"/> Hele tiden

i) Hvor plagsomme er disse smertene i skuldrene?

<i>Venstre skulder:</i>	<i>Høyre skulder:</i>
<input type="checkbox"/> Smarter, men ikke plagsomme	<input type="checkbox"/> Smarter, men ikke plagsomme
<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter

j) Har du de siste 12 månedene hatt smerter i armene?

(Se bort fra skuldersmerter, som ble behandlet i spørsmål g, h og i)

- Nei. Hvis nei, gå til spørsmål 6m.

Flere kryss er mulig.

<i>Venstre arm</i>		<i>Høyre arm</i>	
Ja, i overarm	<input type="checkbox"/>	Ja, i overarm	<input type="checkbox"/>
Ja, i albue	<input type="checkbox"/>	Ja, i albue	<input type="checkbox"/>
Ja, i underarm	<input type="checkbox"/>	Ja, i underarm	<input type="checkbox"/>
Ja, i håndledd	<input type="checkbox"/>	Ja, i håndledd	<input type="checkbox"/>
Ja, i hånd	<input type="checkbox"/>	Ja, i hånd	<input type="checkbox"/>

k) Hvor ofte opplever du smerter i armene?

Venstre arm	Minst en gang i året	Minst en gang i måneden	Minst en gang i uka	Minst en gang om dagen	Hele tiden
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Høyre arm	Minst en gang i året	Minst en gang i måneden	Minst en gang i uka	Minst en gang om dagen	Hele tiden
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

l) Angi hvor plagsomme smertene i armene har vært den siste måneden: Sett ett kryss på hver linje.

Venstre arm	Ingen smerteplager	Smarter, men ikke plagsomme	Litt plagsomme smerter	Ganske plagsomme smerter	Veldig plagsomme smerter
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Høyre arm	Ingen smerteplager	Smarter, men ikke plagsomme	Litt plagsomme smerter	Ganske plagsomme smerter	Veldig plagsomme smerter
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

m) Hva er din dominante hånd/arm?

- Høyre
- Venstre
- Bruker begge like bra

6. SPØRSMÅL OM TANNHELSE

Har du slitasje/skader på tennene som følge av at du bruker tennene som hjelp i utførelse av ulike aktiviteter?

- Nei, ingen slitasje
- Ja, litt slitasje
- Ja, mye slitasje og skader

7. NOEN SPØRSMÅL OM TILFREDSHET MED LIVET OG HELSEN DIN I DAG

Nedenfor står fem utsagn om tilfredshet med livet som et hele. Vis hvor godt eller dårlig hver av de fem påstandene stemmer for deg og ditt liv ved å sette en ring rundt det tallet som du synes stemmer best for deg. (Sett en ring for hvert spørsmål).

	Stemmer dårlig					Stemmer perfekt	
På de fleste måter er livet mitt nær idealet mitt	1	2	3	4	5	6	7
Mine livsforhold er utmerkede	1	2	3	4	5	6	7
Jeg er tilfreds med livet mitt	1	2	3	4	5	6	7
Så langt har jeg fått de viktige tingene jeg ønsker i livet	1	2	3	4	5	6	7
Hvis jeg kunne leve livet på nytt, ville jeg nesten ikke forandret på noe	1	2	3	4	5	6	7

Under hver overskrift ber vi deg krysse av den ENE boksen som best beskriver helsen din I DAG.

GANGE

- Jeg har ingen problemer med å gå omkring
- Jeg har litt problemer med å gå omkring
- Jeg har middels store problemer med å gå omkring
- Jeg har store problemer med å gå omkring
- Jeg er ute av stand til å gå omkring

SMERTER/UBEHAG

- Jeg har verken smerter eller ubehag
- Jeg har litt smerter eller ubehag
- Jeg har middels sterke smerter eller ubehag
- Jeg har sterke smerter eller ubehag
- Jeg har svært sterke smerter eller ubehag

PERSONLIG STELL

- Jeg har ingen problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg har litt problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg har middels store problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg har store problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg er ute av stand til å vaske meg eller kle meg

ANGST/DEPRESJON

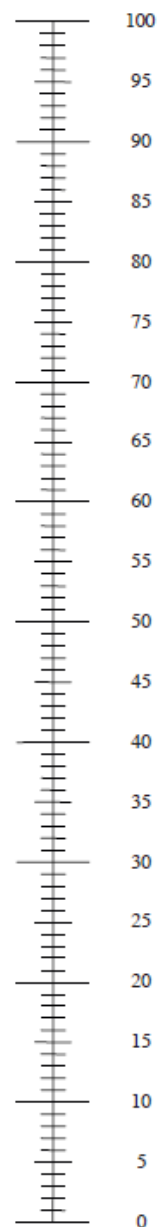
- Jeg er verken engstelig eller deprimert
- Jeg er litt engstelig eller deprimert
- Jeg er middels engstelig eller deprimert
- Jeg er svært engstelig eller deprimert
- Jeg er ekstremt engstelig eller deprimert

VANLIGE GJØREMÅL (for eksempel arbeid, studier, husarbeid, familie- eller fritidsaktiviteter)

- Jeg har ingen problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg har litt problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg har middels store problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg har store problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg er ute av stand til å utføre mine vanlige gjøremål

- Vi vil gjerne vite hvor god eller dårlig helsen din er I DAG.
- Denne skalaen er nummerert fra 0 til 100.
- 100 betyr den beste helsen du kan tenke deg.
0 betyr den dårligste helsen du kan tenke deg.
- Sett en X på skalaen for å angi hvordan helsen din er I DAG.
- Skriv deretter tallet du merket av på skalaen
inn i boksen nedenfor.

HELSEN DIN I DAG =

Den beste helsen
du kan tenke degDen dårligste helsen
du kan tenke deg

8. NOEN SPØRSMÅL OM DINE SYMPTOMER OG DINE EVNER TIL Å UTFØRE VISSE AKTIVITETER

De neste spørsmålene tar for seg dine symptomer og dine evner til å utføre visse aktiviteter. Vær snill å svare på **alle** spørsmål, basert på hvordan det har gått **den siste uken**. Dersom det er noen aktiviteter du ikke har utført siste uken, skal du krysse for det svaret som du mener ville stemme best om du hadde utført aktiviteten.

Det har ingen betydning hvilken arm eller hånd du bruker for å utføre aktiviteten. Baser svarene på hva du får til, uansett hvordan du utfører oppgaven.

Vennligst sett kryss for ett svaralternativ for hvert spørsmål.

	Ingen vanskeligheter	Lette vanskeligheter	Middels vanskeligheter	Svære vanskeligheter	Umulig å gjøre
a. Åpne et nytt syltetøyglass.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b. Utføre tungt husarbeide..... (f.eks vaske gulv eller vegger)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c. Bære dokumentmappe eller handlepose.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d. Vaske ryggen.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e. Skjære opp mat med kniv.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f. Fritidsaktiviteter som krever en viss kraft eller styrke i arm, skulder eller hånd (for eksempel spille golf, bruke hammer, spille tennis).....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

g. I hvilken grad har dine arm, skulder eller håndproblemer hemmet din vanlige omgang med slektninger, venner, naboer eller andre den siste uken? (Sett ett kryss)

Ikke hemmet i det hele tatt	Litt	Moderat	Ganske mye	Ekstremt
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

h. Var du begrenset på grunn av dine arm, skulder eller håndproblemer i ditt arbeid eller andre vanlige daglige aktiviteter i løpet av den siste uken? (Sett ett kryss)

Ikke begrenset i det hele tatt	Litt begrenset	Moderat begrenset	Svært begrenset	Umulig
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Angi alvorlighetsgraden av de følgende symptomene i den siste uken:

	Ingen	Lett	Moderat	Sterk	Ekstrem
i. Smerte i arm, skulder eller hånd.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
j. Prikking ("mauring", "sovnet") arm, skulder eller hånd.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

k. Hvor mye vansker har du hatt den siste uken med å sove på grunn av smerte i arm, skulder eller hånd?

Ingen vansker	Litt vansker	Moderate vansker	Betydelige vansker	Har ikke fått sove
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Takk for hjelpen!

Vær vennlig å sende det utfylte skjemaet tilbake til oss i den ferdig frankerte svarkonvolutten så snart som mulig

Vedlegg 6 Informasjonsskriv kontroller



Oslo universitetssykehus HF
Rikshospitalet
Postboks 4950 Nydalen
0424 Oslo
Sentralbord: 02770

Klinikk for kirurgi og nevrofag
Ortopedisk avdeling
Seksjon for forskning og kompetansesenter

20. januar 2015

Forespørsel om deltakelse

i en KONTROLLGRUPPE til studien:
En undersøkelse av livskvalitet, belastningsplager og protesebruk hos voksne med
reduksjonsdeformitet i armene (RDA).

Grunnen til at du blir kontaktet og forespurt

Du er en av 1092 voksne, tilfeldig trukket ut fra Folkeregisteret i forbindelse med vår studie. Vi spør mennesker som IKKE har reduksjonsdeformitet i armene (RDA) om de vil delta i en kontrollgruppe til denne studien. Dersom du velger å delta i studien, vil du altså utgjøre en del av vårt referansemateriale.

Hensikten med studien

RDA er en medfødt mangel på deler av armen(e). Målet med studien er å få bedre kunnskap om livssituasjonen til personer med RDA i Norge. For å få vite om livssituasjonen er annerledes for dem med RDA enn for resten av befolkningen, vil deres situasjon bli sammenliknet med referansematerialets.

Hva vil det bety for deg å delta i studien?

Du fyller ut det vedlagte spørreskjemaet og returnerer det i den ferdig frankerte svarconvolutten. Utfyllingen vil ta omtrent 10 minutter.

Du kan på et hvilket som helst tidspunkt trekke deg fra studien uten å måtte begrunne dette nærmere.

Slik ivaretas ditt personvern

Med hjemmel i helseforskningsloven er prosjektet forhåndsgodkjent av Regional komité for medisinsk og helsefaglig forskningsetikk, Øst-Norge (REK sør-øst) og av Personvernombudet for forskning ved Oslo universitetssykehus. Forskningsdata lagres på et eget, sikret datasystem ved Oslo universitetssykehus. Alle opplysningene vil bli behandlet konfidensielt og avidentifisert. Det vil si at en kode knytter deg til dine opplysninger gjennom en personnummerliste. Denne personnummerlisten er det bare prosjektleder Trine Sand Kaastad og prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik som har adgang til, og de er de eneste som kan finne tilbake til deg. De har taushetsplikt.

Resultatene fra studien vil bli publisert som gruppedata, uten at den enkelte kan gjenkjennes. Etter studien vil opplysningene bli anonymisert (ved at kodene fjernes fra databasen). Dette vil skje senest 31.12. 2020.

Du har rett til å få innsyn i hvilke opplysninger som er registrert om deg. Du har videre rett til å få korrigert eventuelle feil i de opplysningene vi har registrert. Du kan på et hvilket som helst tidspunkt trekke deg fra studien uten å måtte begrunne dette nærmere. Hvis du trekker deg fra studien, kan du kreve å få slettet



opplysninger vi har registrert. Du kan ikke få slettet opplysninger dersom de er anonymisert eller dersom opplysningene allerede har inngått i et vitenskapelig arbeid.

Mer informasjon

Hvis du har spørsmål om studien kan du kontakte prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik på telefon 23076097 / 98679003.

Problemer med spørreskjemaet?

Dersom noen av spørsmålene i spørreskjemaet er uklare, kan du få hjelp ved å ringe prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik på ett av telefonnumrene ovenfor.

Slik deltar du i studien

Vedlagt dette brevet ligger et spørreskjema og en samtykkeerklæring. Hvis du ønsker å delta i studien, ber vi deg returnere underskrevet samtykkeerklæring og utfylt spørreskjema til oss i vedlagte frankerte svarkonvolutt.

Vennlig hilsen,



Trine Sand Kaastad
Prosjektleder
Overlege Dr.med., Dysmeliteamet
Oslo universitetssykehus HF



Anne-Karin Vik,
Prosjektmedarbeider
Koordinator, Nasjonalt fagnettverk for dysmeli
Oslo universitetssykehus HF

Vedlegg 7 Samtykke kontroller

Samtykke

til deltakelse i "RDA-studien" for KONTROLLGRUPPEN:

Jeg bekrefter at jeg har mottatt skriftlig informasjon om studien, har fått anledning til å innhente den informasjon jeg har hatt behov for og er villig til å delta i prosjektet.

(Signert av prosjektdeltaker, dato)

Navn:.....(store bokstaver)

Adresse:.....(store bokstaver)

Jeg har svart innen 3 uker fra brevets dato og ønsker å være med i trekningen av et Apple iPad AIR 2 nettbrett 16 GB WiFi(Sett kryss).

Jeg bekrefter å ha gitt informasjon om studien



(Signert av Anne-Karin Vik, prosjektmedarbeider, 20.01.15 på vegne av prosjektleder Trine Sand Kaastad)

Vedlegg 8 Spørreskjema kontroller



Spørreskjema

for kontrollgruppen i studien:

En undersøkelse av livskvalitet, belastningsplager
og protesebruk hos voksne med reduksjonsdeformitet i armene (RDA).

Vær vennlig å svare på alle spørsmålene så godt du kan ved å sette kryss i relevant boks eller fylle ut på linjen.

Dersom det er noen spørsmål du ikke ønsker å svare på, så kan du hoppe over dem.

Vi ønsker uansett at du sender spørreskjemaet tilbake til oss. Dersom noe er uklart kan du få hjelp ved å kontakte prosjektmedarbeider Anne-Karin Vik på telefon 23 07 60 97/986 79 003.

1. BAKGRUNNSOPPLYSNINGER:

ID-nr:

- a) Din alder: _____ år Kvinne Mann
- b) Boforhold: Gift/Samboer Bor alene Bor sammen med andre enn ektefelle/samboer (for eksempel barn)
Hvor mange i husstanden _____
- c) Er du i lønnet arbeid? Ja Nei
Hvis ja, vil du beskrive ditt arbeid som:
 Tungt manuelt (for eksempel gårdbruker, håndverker)
 Lett manuelt (for eksempel butikkarbeider, ansatt i barnehage)
 Kontorarbeid
- d) Er du i full jobb i dag? D.v.s. 100%
 Ja
 Nei, deltidsarbeid. Angi % av full stilling. _____%
- e) Er du student/skoleelev i dag: Ja Nei
- f) Hva er den høyeste utdannelsen du har fullført?
 Ingen utdanning/skolegang
 9/10årig grunnskole
 Videregående yrkesfag
 3-årig videregående allmennfag/gymnas
 Høgskole
 Universitet
 Annen utdanning
- g) Er du sykmeldt nå? Ja Nei
Hvis ja, i hvilken prosent? _____%
Hvor lenge har du vært sykmeldt? _____ måneder
Hva er grunnen til at du er sykmeldt? (Flere kryss er mulig)
 Fysiske belastningsplager, spesifiser: hånd arm skulder nakke brystrygg korsrygg hofte knær
 Psykiske plager
 Annet
- h) Er du på arbeidsavklaringspenger? Ja Nei
- i) Er du uføretrygdet? Ja Nei
Hvis ja, i hvilken prosent? _____%
Hvor lenge har du vært uføretrygdet?: _____ år _____ måneder
Hva er grunnen til at du er uføretrygdet? (Flere kryss er mulig)
 Fysiske belastningsplager: hånd arm skulder nakke brystrygg korsrygg hofte knær
 Psykiske plager Annet

2. SPØRSMÅL OM FYSISK AKTIVITET

Hvor ofte trener du? (Med trening menes fysisk aktivitet minimum en halv time der du blir svett og andpusten. For eksempel jogging, trening i helsestudio, sykling, dans)

- | |
|--|
| <input type="checkbox"/> Trener ikke
<input type="checkbox"/> Mindre enn 1 gang i uka
<input type="checkbox"/> 1 gang i uka
<input type="checkbox"/> 2 ganger i uka
<input type="checkbox"/> 3 ganger i uka
<input type="checkbox"/> Mer enn 3 ganger i uka |
|--|

3. SPØRSMÅL OM FYSISKE PLAGER OG SMERTER

a) Har du i løpet av de siste 12 månedene hatt smerter i nakken eller øvre del av ryggen?

- Ja, venstre side
 Ja, høyre side
 Nei. Gå til spørsmål 3 d

b) Hvor ofte opplever du disse smertene?

<i>Venstre side:</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Minst en gang i året	<input type="checkbox"/> Minst en gang i året
<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden	<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden
<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka	<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka
<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen	<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen
<input type="checkbox"/> Hele tiden	<input type="checkbox"/> Hele tiden

c) Hvor plagsomme er disse smertene?

<i>Venstre side:</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme	<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme
<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter

d) Har du de siste 12 månedene hatt smerter i korsryggen?

- Ja, venstre side
 Ja, høyre side
 Nei. Gå videre til spørsmål 3 g

e) Hvor ofte opplever du disse smertene?

<i>Venstre side:</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Minst en gang i året	<input type="checkbox"/> Minst en gang i året
<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden	<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden
<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka	<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka
<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen	<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen
<input type="checkbox"/> Hele tiden	<input type="checkbox"/> Hele tiden

f) Hvor plagsomme er disse smertene i korsryggen?

<i>Venstre side:</i>	<i>Høyre side:</i>
<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme	<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme
<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter

g) Har du de siste 12 månedene hatt smerter i skuldrene?

- Ja, *venstre* side
 Ja, *høyre* side
 Nei. Hvis nei, gå videre til spørsmål 3 j

h) Hvor ofte opplever du disse smertene i skuldrene?

<i>Venstre skulder:</i>	<i>Høyre skulder:</i>
<input type="checkbox"/> Minst en gang i året	<input type="checkbox"/> Minst en gang i året
<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden	<input type="checkbox"/> Minst en gang i måneden
<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka	<input type="checkbox"/> Minst en gang i uka
<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen	<input type="checkbox"/> Minst en gang om dagen
<input type="checkbox"/> Hele tiden	<input type="checkbox"/> Hele tiden

i) Hvor plagsomme er disse smertene i skuldrene?

<i>Venstre skulder:</i>	<i>Høyre skulder:</i>
<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme	<input type="checkbox"/> Smerter, men ikke plagsomme
<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Litt plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Ganske plagsomme smerter
<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter	<input type="checkbox"/> Veldig plagsomme smerter

j) Har du de siste 12 månedene hatt smerter i armene?

(Se bort fra skuldersmerter, som ble behandlet i spørsmål g, h og i)

- Nei. Hvis nei, gå til spørsmål 3 m.

Flere kryss er mulig.

<i>Venstre arm:</i>	<i>Høyre arm:</i>
Ja, i overarm <input type="checkbox"/>	Ja, i overarm <input type="checkbox"/>
Ja, i albue <input type="checkbox"/>	Ja, i albue <input type="checkbox"/>
Ja, i underarm <input type="checkbox"/>	Ja, i underarm <input type="checkbox"/>
Ja, i håndledd <input type="checkbox"/>	Ja, i håndledd <input type="checkbox"/>
Ja, i hånd <input type="checkbox"/>	Ja, i hånd <input type="checkbox"/>

k) Hvor ofte opplever du smerter i armene? Sett ett kryss på hver linje.

Venstre arm:	Minst en gang i året	Minst en gang i måneden	Minst en gang i uka	Minst en gang om dagen	Hele tiden
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Høyre arm:	Minst en gang i året	Minst en gang i måneden	Minst en gang i uka	Minst en gang om dagen	Hele tiden
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

l) Angi hvor plagsomme smertene i armene har vært den siste måneden: Sett ett kryss på hver linje.

Venstre arm:	Ingen smerteplager	Smerter, men ikke plagsomme	Litt plagsomme smerter	Ganske plagsomme smerter	Veldig plagsomme smerter
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Høyre arm:	Ingen smerteplager	Smerter, men ikke plagsomme	Litt plagsomme smerter	Ganske plagsomme smerter	Veldig plagsomme smerter
Overarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Albue	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Underarm	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Håndledd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
Hånd	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

m) Hva er din dominante hånd/arm?

- Høyre
- Venstre
- Bruker begge like bra

4. NOEN SPØRSMÅL OM TILFREDSHET MED LIVET OG HELSEN DIN I DAG

Tilfredshet med livet

Nedenfor står fem utsagn om tilfredshet med livet som et hele. Vis hvor godt eller dårlig hver av de fem påstandene stemmer for deg og ditt liv ved å sette en ring rundt det tallet som du synes stemmer best for deg. (Sett en ring for hvert spørsmål).

	Stemmer dårlig					Stemmer perfekt	
På de fleste måter er livet mitt nær idealet mitt	1	2	3	4	5	6	7
Mine livsforhold er utmerkede	1	2	3	4	5	6	7
Jeg er tilfreds med livet mitt	1	2	3	4	5	6	7
Så langt har jeg fått de viktige tingene jeg ønsker i livet	1	2	3	4	5	6	7
Hvis jeg kunne leve livet på nytt, ville jeg nesten ikke forandret på noe	1	2	3	4	5	6	7

Under hver overskrift ber vi deg krysse av den ENE boksen som best beskriver helsen din I DAG.

GANGE

- Jeg har ingen problemer med å gå omkring
- Jeg har litt problemer med å gå omkring
- Jeg har middels store problemer med å gå omkring
- Jeg har store problemer med å gå omkring
- Jeg er ute av stand til å gå omkring

SMERTER/UBEHAG

- Jeg har verken smerter eller ubehag
- Jeg har litt smerter eller ubehag
- Jeg har middels sterke smerter eller ubehag
- Jeg har sterke smerter eller ubehag
- Jeg har svært sterke smerter eller ubehag

PERSONLIG STELL

- Jeg har ingen problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg har litt problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg har middels store problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg har store problemer med å vaske meg eller kle meg
- Jeg er ute av stand til å vaske meg eller kle meg

ANGST/DEPRESJON

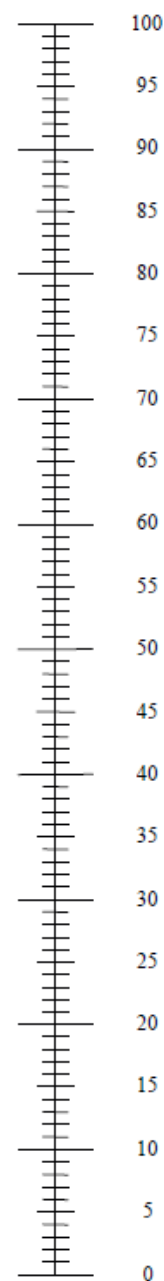
- Jeg er verken engstelig eller deprimert
- Jeg er litt engstelig eller deprimert
- Jeg er middels engstelig eller deprimert
- Jeg er svært engstelig eller deprimert
- Jeg er ekstremt engstelig eller deprimert

VANLIGE GJØREMÅL (for eksempel arbeid, studier, husarbeid, familie- eller fritidsaktiviteter)

- Jeg har ingen problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg har litt problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg har middels store problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg har store problemer med å utføre mine vanlige gjøremål
- Jeg er ute av stand til å utføre mine vanlige gjøremål

- Vi vil gjerne vite hvor god eller dårlig helsen din er I DAG.
- Denne skalaen er nummerert fra 0 til 100.
- 100 betyr den beste helsen du kan tenke deg.
0 betyr den dårligste helsen du kan tenke deg.
- Sett en X på skalaen for å angi hvordan helsen din er I DAG.
- Skriv deretter tallet du merket av på skalaen
inn i boksen nedenfor.

HELSEN DIN I DAG =

Den beste helsen
du kan tenke degDen dårligste helsen
du kan tenke deg

5. NOEN SPØRSMÅL OM DINE SYMPTOMER OG DINE EVNER TIL Å UTFØRE VISSE AKTIVITETER

De neste spørsmålene tar for seg dine symptomer og dine evner til å utføre visse aktiviteter. Vær snill å svare på alle spørsmål, basert på hvordan det har gått den siste uken. Dersom det er noen aktiviteter du ikke har utført siste uken, skal du krysse for det svaret som du mener ville stemme best om du hadde utført aktiviteten.

Det har ingen betydning hvilken arm eller hånd du bruker for å utføre aktiviteten. Baser svarene på hva du får til, uansett hvordan du utfører oppgaven.

Vennligst sett kryss for ett svaralternativ for hvert spørsmål.

	Ingen vanskeligheter	Lette vanskeligheter	Middels vanskeligheter	Svære vanskeligheter	Umulig å gjøre
a. Åpne et nytt syltetoysglass.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
b. Utføre tungt husarbeide (f.eks vaske gulv eller vegger)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
c. Bære dokumentmappe eller handlepose.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
d. Vaske ryggen.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
e. Skjære opp mat med kniv.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
f. Fritidsaktiviteter som krever en viss kraft eller styrke i arm, skulder eller hånd (for eksempel spille golf, bruke hammer, spille tennis).....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

g. I hvilken grad har dine arm, skulder eller håndproblemer hemmet din vanlige omgang med slektninger, venner, naboer eller andre den siste uken? (Sett ett kryss)

Ikke hemmet i det hele tatt	Litt	Moderat	Ganske mye	Ekstremt
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

h. Var du begrenset på grunn av dine arm, skulder eller håndproblemer i ditt arbeide eller andre vanlige daglige aktiviteter i løpet av den siste uken? (Sett ett kryss)

Ikke begrenset i det hele tatt	Litt begrenset	Moderat begrenset	Svært begrenset	Umulig
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Angi alvorlighetsgraden av de følgende symptomene i den siste uken:

	Ingen	Lett	Moderat	Sterk	Ekstrem
i. Smerte i arm, skulder eller hånd.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
j. Prikking ("mauring", "sovnet") arm, skulder eller hånd.....	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

k. Hvor mye vansker har du hatt den siste uken med å sove på grunn av smerte i arm, skulder eller hånd?

Ingen vansker	Litt vansker	Moderate vansker	Betydelige vansker	Har ikke fått sove
<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Takk for hjelpen!

Vær vennlig å sende det utfylte skjemaet tilbake til oss i den ferdig frankerte svarkonvolutten så snart som mulig

Vedlegg 9 Godkjenning EuroQoL



Oslo universitetssykehus HF
Rikshospitalet
Postboks 4950 Nydalen
0424 Oslo

Sentralbord: 02770

Dr Bernhard Slaap,
EuroQol Executive Director
EuroQol Foundation
Marten Meesweg 107
3068 AV Rotterdam

Klinikk for kirurgi og nevrofag
Ortopedisk avdeling
Seksjon for forskning, Ortopedi

20th June 2013

Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics wishes to use the following language version of EQ-5D-5L in the Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics study: *"Quality of life, overuse syndromes and prosthetic use in adults with congenital upper limb reduction deformity"*: Norwegian (Norway).

The EuroQol Group Foundation has given permission for Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics to use this version in this study subject to the following conditions:

1. The language version of EQ-5D-5L specified above will only be used for this particular study. Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics will not use this version (or any other EQ-5D language versions) in any other studies without first obtaining permission from the EuroQol Group Executive Office.
2. The language version of EQ-5D-5L specified above will only be circulated within Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics on a 'need to know' basis.
3. Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics agrees that they will not use the specified language version of EQ-5D-5L for any advertising, promotion, press, media, internet or other public purpose except upon advance written notice of approval from the EuroQol Group Foundation; provided, however that Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics shall be free to use and publish the results obtained from its use of the specified language version of EQ-5D-5L for research and academic purposes.
4. This undertaking applies only to paper versions of EQ-5D-5L. Any digital representation (e.g. web-based, PDA, tablet, etc.) has to receive express permission from the EuroQol Executive Office.
5. This Arrangement is governed by Dutch law.

Signed on behalf of Oslo University Hospital, Department of Orthopaedics

Rolf Riise

Date:

20th June 2013

