



UiO • Universitetet i Oslo

# Barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling

*Foreldres vurdering av livskvalitet hos barn med  
variasjon i kroppslig kjønnsutvikling: Betydning av  
trivsel og psykososial helse på skolen*

Malin Kristine Thams Grindbakken

Masteroppgave i Spesialpedagogikk

Institutt for Spesialpedagogikk

Det utdanningsvitenskapelige fakultet

Vår 2020



# Barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling

Foreldrenes vurdering av livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling: Betydning av trivsel og psykososial helse på skolen

Malin Kristine Thams Grindbakken

© Malin Kristine Thams Grindbakken 2020

Barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. En studie om foreldrenes vurdering av livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling: Betydning av trivsel og psykososial helse på skolen

Malin Grindbakken

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

Trykk: Reprosentralen, Universitetet i Oslo

# Sammendrag

Viktigheten av god livskvalitet for utvikling og læring er godt dokumentert (Helsedirektoratet, 2015). Imidlertid vet vi lite om livskvaliteten til barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i Norge, og om hvordan disse elevene blir ivaretatt i barnehage- og skole.

En stor del av barnas hverdag blir tilbrakt i skole eller barnehage. Skolen og barnehagen er en arena for læring, vennskap og utvikling. Forskning viser at det er behov for å styrke elevgruppen som bryter med den normative forståelsen av kjønn både innenfor likeverdsprinsippet, livskvalitet og rettigheter (Barne- og likestillingsdepartementet, 2016). Ifølge en rapport utviklet av Redd Barna, LLH og Skeiv Ungdom (2016) er økt kunnskap og tilgjengelig informasjon for fagpersoner i møte med denne elevgruppen viktig for å motvirke stereotyper og fordommer, samt vide ut den normative forståelsen av kjønn.

Denne oppgaven tar sikte på å undersøke livssituasjonen til barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i Norge gjennom en surveyundersøkelse av foreldrenes vurderinger. Formålet med studien var å få en større forståelse for livskvaliteten hos barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, samt belyse dette i et pedagogisk perspektiv. En større forståelse for ulike behov og utfordringer for gruppen har stått i fokus med tanke på å kunne identifisere utfordringer og eventuelle behov i barnehage- og skolesektoren. Derfor er problemstillingen som følger:

*«Hvordan er foreldres vurdering av livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, og hvilken betydning kan diagnosen ha på deres trivsel og psykososiale helse i barnehage og skole?»*

Resultatene i studien antyder at foreldres vurdering av barnas livskvalitet er generelt innenfor normalområdet på de fleste subskalaene, men noe nedsatt sammenlignet med studier av en normal populasjon. Imidlertid viser resultatene at foreldre identifiserer utfordringer knyttet til barnas fungering i barnehage og skole og emosjonell fungering. Studien viser at det er en sterk sammenheng mellom barns livskvalitet og psykososiale helse og deres fungering i barnehage og skole, og belyser både individ- og miljøfaktorer som mulige årsaker.

# Forord

Arbeidet med denne masteroppgaven har vært lærerikt, tidskrevende og altoppslukende. Jeg har vært meget heldig som har fått innsyn i datamateriale fra Senter for Sjeldne diagnoser, og med det fått fordype meg både i et fagfelt og en metodisk fremgangsmåte som jeg ikke var godt kjent med. Dette har følgelig hatt sine utfordringer og krevd en del mer av meg enn jeg forutså. Likevel er jeg takknemlig for muligheten til å fordype meg i et så aktuelt tema som det er lite norsk forskning på. Da jeg spurte mine medstudenter om de hadde kunnskap om dette, svarte så og si alle nei, dette belyste hvor viktig dette temaet var å få frem i fokus. Det å kunne utforske et tema som ikke er så kjent har vært utrolig spennende og lærerikt. Jeg håper jeg har belyst dataene jeg har fått innsyn i med god forskningsskikk og at jeg klarer å fremstille det informantene har forsøkt å formidle på en god måte.

Å skrive en masteroppgave i ‘disse korona-tider’ har bydd på en rekke utfordringer. Mangel på ressurser i forhold til prosessen har vært krevende. Savnet etter medstudenter har vært stort i et så omfattende arbeid. Likevel kom jeg i mål, og sier meg fornøyd med resultatet som har blitt oppnådd til tross for savnet etter Blindern, lesesaler og bibliotek.

Først og fremst vil jeg gi en stor takk til mine veiledere ved Senter for Sjeldne diagnoser. Solrun Sigurdardottir som har stilt opp hver gang analytiske metoder har satt bremsen for oppgaven, og Line Merete Mediå som har både kommet med reflekterende spørsmål og motivert meg mot slutten av prosessen. Tusen takk til dere begge, for gode konstruktive tilbakemeldinger som har vært til god hjelp i jakten på den røde tråden. Ellers vil jeg takke veilederen min ved UiO, Christian Brandmo, for spesifikke tilbakemeldinger rettet mot mine mål og ambisjoner for oppgaven, og særlig veiledning med utarbeiding av den metodiske delen av oppgaven.

Avslutningsvis vil jeg gi en stor takk til Daniel Rugaas for en real språkvask. Når fortvilelsen tok overhånd var jeg særlig takknemlig for min tålmodige samboer og mamma. Takk for forståelsen, takk for støtten - nå har jeg endelig tid til dere igjen.

God lesing!

Malin Grindbakken

# Innholdsfortegnelse

<b>1</b>	<b><u>INNLEDNING</u></b>	<b>1</b>
1.1	TEMA, BAKGRUNN OG PROBLEMSTILLING	2
1.2	OPPGAVENS OPPBYGGING	3
<b>2</b>	<b><u>TEORI, BAKGRUNN OG TIDLIGERE FORSKNING</u></b>	<b>4</b>
2.1	VARIASJON I KROPPSLIG KJØNNSUTVIKLING	4
2.1.1	ULIKE TILSTANDER REPRESENTERT I STUDIEN	5
2.2	LIVSKVALITET	7
2.2.1	LIVSKVALITET OG DETS BETYDNING FOR LÆRING OG UTVIKLING	8
2.2.2	TOLKNING AV LIVSKVALITET OG SKOLETILFREDSHET	10
2.3	TIDLIGERE FORSKNING OM PSYKOSOSIAL UTVIKLING OG LIVSMESTRING HOS PERSONER MED VARIASJON I KROPPSLIG KJØNNSUTVIKLING	11
2.4	FORSKNING SOM FREMHEVER UTFORDRINGER FOR BARN MED VARIASJON I KROPPSLIG KJØNNSUTVIKLING I SKOLEN	16
2.5	OPPSUMMERING AV FUNN FRA LITTERATURSØK OG UTVIKLING AV FORSKNINGSSPØRSMÅL	20
<b>3</b>	<b><u>METODE</u></b>	<b>22</b>
3.1	PRESENTASJON AV UNDERSØKELSEN	22
3.2	DELTAKERE OG REKRUTTERING	23
3.3	SURVEY SOM METODE FOR DATAINNSAMLING	24
3.4	MÅLEINSTRUMENTER	25
3.4.1	OPERASJONALISERING OG BEGREPSVALIDITET	25
3.4.2	PEDIATRIC QUALITY OF LIFE INVENTORY - PEDSQL	26
3.4.3	STRENGTH AND DIFFICULTIES QUESTIONNAIRE (SDQ)	28
3.4.4	WORLD HEALTH ORGANIZATION QUALITY OF LIFE- BREF (WHOQOL-BREF)	29
3.5	VALIDITET OG GENERALISERINGSSPØRSMÅLET	31
3.6	RELIABILITET	32
3.6.1	ESTIMERING AV RELIABILITET MED CRONBACH'S ALFA RELIABILITETSANALYSE	32
3.6.2	TILFELDIGE MÅLINGSFEIL, MANGLENDE DATA OG EKSTREM PUNKTER	33
3.7	FORSKNINGSETIKK	35
3.8	STATISTISKE ANALYSER	36
<b>4</b>	<b><u>ANALYSE OG RESULTATER</u></b>	<b>37</b>
4.1	INNLEDENDE ANALYSER	37
4.1.1	NORMALITET OG VALG AV ANALYSER	37
4.1.2	CRONBACH'S ALFA – RELIABILITETSANALYSE	39
4.1.3	PRESENTASJON AV BAKGRUNNSVARIABLER	41
4.1.4	DESKRIPTIV STATISTIKK AV SUMMESKÅRER	43
4.2	RESULTATER KNYTTET TIL FORSKNINGSSPØRSMÅL	46
4.2.2	ER LIVSKVALITET HOS BARN MED DSD FORSKJELLIG MELLOM KJØNN?	51
4.2.3	HVILKE FAKTORER VISER SAMMENHENG MED LIVSKVALITETSKÅREN HOS BARNET?	54
4.2.4	HVILKE FAKTORER HAR STERK SAMMENHENG MED BARNETS FUNGERING I SKOLE OG BARNEHAGE?	60

<b>5</b>	<b><u>DISKUSJON</u></b>	<b>62</b>
5.1	OPPSUMMERING AV SENTRALE FUNN KNYTTET TIL TEORETISK FORANKRING	62
5.2	STUDIENS BEGRENSNINGER	66
5.3	IMPLIKASJONER FOR VIDERE FORSKNING	68
<b>6</b>	<b><u>KONKLUSJON</u></b>	<b>69</b>
<b>7</b>	<b><u>REFERANSER</u></b>	<b>71</b>
	<b><u>VEDLEGG 1. INVITASJON TIL DELTAKELSE I STUDIEN</u></b>	<b>89</b>
	<b><u>VEDLEGG 2. BOKSPLOTT OG HISTOGRAM FOR PEDSQL</u></b>	<b>91</b>
	<b><u>VEDLEGG 3: BOKSPLOTT OG HISTOGRAM FOR STRENGTH AND DIFFICULTIES QUESTIONNAIRE</u></b>	<b>97</b>
	<b><u>VEDLEGG 4. BOXPLOT OG HISTOGRAM: WHOQOL-BREF</u></b>	<b>102</b>

Antall ord: 21917



## Oversikt over tabeller og figurer.

<b>Tabell 1.</b> PedsQL Gjennomsnitt for ungdommer (13-15 år) i Sør-Trøndelag (Reinfjell et al., 2006) .....	s. 28
<b>Tabell 2.</b> Normalitetstest PedsQL.....	s. 38
<b>Tabell 3.</b> Normalitetstest SDQ.....	s. 38
<b>Tabell 4.</b> Normalitetstest WHOQOL-BREF.....	s. 38
<b>Tabell 5.</b> Cronbach's Alfa analyse.....	s. 40
<b>Tabell 6.</b> Oversikt over bakgrunnsvariabler.....	s. 42
<b>Tabell 7.</b> Deskriptiv statistikk på PedsQL, SDQ og WHOQOL-BREF.....	s. 44
<b>Tabell 8.</b> Deskriptiv statistikk PedsQL (alder).....	s. 47
<b>Tabell 9.</b> Kruskal Wallis test.....	s. 49
<b>Tabell 10.</b> Deskriptiv statistikk PedsQL fordelt på kjønn.....	s. 52
<b>Tabell 11.</b> Mann Whitney U test.....	s. 53
<b>Tabell 12.</b> Korrelasjoner mellom PedsQL subskalaer og PedsQL total.....	s. 55
<b>Tabell 13.</b> Korrelasjoner mellom subskalaer: SDQ og PedsQL.....	s. 56
<b>Tabell 14.</b> Korrelasjoner mellom subskalaer: WHOQOL-BREF og PedsQL.....	s. 57
<b>Figur 1.</b> Box Plot (PedsQL) alder.....	s. 50
<b>Figur 2.</b> Spredningsplott (SDQ og PedsQL).....	s. 59

# 1 Innledning

Variasjon i kroppslig kjønnsutvikling refererer til sjeldne genetiske tilstander som resulterer i atypisk utvikling av kroppslig kjønn. Som resultat av dette kan personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling falle utenfor den normative forståelsen av to kjønn; gutt og jente (Lee, Houk, Ahmed og Houghes, 2006). Lenge har variasjon i kroppslig kjønnsutvikling vært preget av medisinske perspektiver, men de siste årene har også menneskerettighetstema vært i fokus – både via organisasjoner som for eksempel «Fri», «Skeiv ungdom» og «Rosa Kompetanse», samt at regjeringen har inkludert tilstandene i sine stortingsmeldinger (Meld. St. 31 (2018-2019)), regjeringens nasjonale utredninger (NOU:19, 2019) og handlingsplaner (Barne- og likestillingsdepartementet, 2016). Det som til dels er mangelfullt er studier og forskning med fokus rettet mot utdanning. Det spesialpedagogiske fagfeltet tar sikte på å sikre god faglig og sosial utvikling ved å skape et inkluderende samfunn som viser aksept for mangfold. Imidlertid viser tall fra Barne-, ungdoms- og familiedirektoratet (2017) at 1 av 4 mener at det ikke er nok aksept i samfunnet for å leve åpent som interkjønn.

En rapport utarbeidet av Redd Barna, Skeiv Ungdom og LLH – landsforeningen for lesbiske, homofile, bifile og transpersoner (2016) viser at barn som bryter med normer for kjønn og seksualitet har nedsatt livskvalitet, og at de er dårligere stilt på sentrale oppvekstarenaer som helse og utdanning. Rapporten understreker at det er stort behov for økt kunnskap og tilgjengelig informasjon til fagfolk i alle instanser som møter barn og unge. Dette er en viktig del av arbeidet for å motvirke fordommer, i tillegg til å redusere mobbing, trakassering og diskriminering.

Ikke alle barn og unge har like muligheter for utvikling faglig og sosialt. Det kan være kroppslige funksjoner som er nedsatt, medfødte mentale eller somatiske sykdommer, psykiske eller psykososiale utfordringer, eller lærevansker av ulik art som påvirker læringsutviklingen negativt. Dette er reelle utfordringer for barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, likevel er det spesialpedagogiske perspektivet tilnærmet usynlig i interkjønn-fagfeltet og i forskningen. Skolen er ikke bare viktig i forhold til sosial og faglig utvikling, men også holdninger til seg selv og andre (Redd barna, Skeiv Ungdom & LLH, 2016). Derfor er det avgjørende at skolen, gjennom innhold i undervisning og det psykososiale miljøet på skolen, er bevisst på hvordan elever blir møtt når det gjelder spørsmål rettet mot kjønn, kjønnsidentitet og seksualitet (Barne-, ungdoms- og familiedirektoratet, 2017; Redd Barna, 2020).

## 1.1 Tema, bakgrunn og problemstilling

Noen barn blir født med uklart biologisk kjønn, med kjønnskjenntegn som ikke passer inn i dikotomien jente eller gutt. Hvert år blir omlag 1 av 200 nyfødte henvist til den flerregionale behandlertjenesten, det vil si Oslo Universitetssykehus (OUS) eller Haukeland sykehus i Bergen, med spørsmål om barnet kan ha en variasjon i kroppslig kjønnsutvikling (Diseth, 2008). Variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er variasjon som anses å være utenfor normen for det man tradisjonelt forbinder med en guttekropp eller jentekropp (Diseth, 2008). Kjennetegnene som gjør dem vanskelige å plassere kan gjelde kjønnsanatomien, reproduktive organer, hormonmønstre og/eller kromosommønstre (Diseth, 2008).

Barne- og likestillingsdepartementet (2016) hevder at barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er forblitt nesten usynlig i offentligheten, og presiserer at det er viktig å heve kunnskapsnivået rundt de ulike variasjonene av kjønn og belyse hvordan kjønnsvariasjoner kan påvirke livskvalitet og tilfredshet i barnehage og skole for barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling.

Denne studien ønsker å undersøke livskvaliteten hos barn og unge med kjønnsvariasjoner gjennom foreldrenes vurderinger av eget barn, samt belyse viktigheten av trivsel og psykososial helse for læring og utvikling. Både barnehage- og skolevirksomhet er underrepresentert i forskningen, selv om disse arenaene er blant de viktigste miljøene til barna. Det er derfor nødvendig å sette søkelys på hvordan slike diagnoser kan påvirke barnet i skolen. Til grunn for denne masteroppgavens resultater og analyse, ligger spørreskjema som foreldre har svart på vedrørende livskvaliteten til eget barn. Selv om dette er en kvantitativ studie, er oppgaven innrettet som en studie av deskriptiv art, og derfor lyder problemstillingen som følger:

*«Hvordan er foreldres vurdering av livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, og hvilken betydning kan diagnosen ha på trivsel og psykososial helse i barnehage og skole?»*

## 1.2 Oppgavens oppbygging

Oppgaven er inndelt i kapitler og blir strukturert etter disse. Kapittel 1 er det innledende kapitlet hvor bakgrunn for oppgaven og problemstilling er blitt presentert. I kapittel 2 beskrives begreper, diagnoser, teori og studier om livskvalitet, deretter vil livskvalitet bli satt i et pedagogisk perspektiv. Mot slutten av kapittel 2 presenteres tidligere forskning omkring variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. Avslutningsvis oppsummeres funn fra litteratursøk som ligger til grunn for utvikling av forskningsspørsmål.

Kapittel 3 omhandler metode. Metodekapitlet innleder med en kort presentasjon av undersøkelsen, deretter en redegjørelse for utvalg og rekrutteringsprosessen. Jeg har valgt å vektlegge en utfyllende beskrivelse av de ulike kartleggingene. Her diskuteres fortrinnsvis operasjonalisering og begrepsvaliditet, etterfulgt av informasjon om de ulike måleinstrumentene, hvordan skårene blir gitt og tidligere forskning vedrørende måleinstrumentenes validitet og reliabilitet. Deretter presenteres to former for validitet som kan vurderes i forhold til type slutninger, som kausale slutninger (indre validitet) og generaliseringer (ytre validitet) som er mest relevant for denne studien. Videre belyses reliabilitetsaspektet ved oppgaven som inneholder valg av reliabilitetsanalyse, håndtering av manglende data og ekstrempunkter. Avslutningsvis i kapitlet reflekteres det rundt forskningsetiske spørsmål.

I kapittel 4 presenteres resultatene fra analyser og valg av analyser blir redegjort for der de benyttes. Innledende analyser slik som normalitetsanalyse og Cronbach's alfa blir vurdert for å se om dataene egner seg for videre analyser. Deretter benyttes deskriptiv statistikk for å gi et helhetlig bilde av dataene som er innhentet. Avslutningsvis vil forskningsspørsmålene (se kap. 2.5.) stå i fokus.

Kapittel 5 innledes med en oppsummering av funn fra undersøkelsen. Funn knyttet til hvert forskningsspørsmål leder strukturen i kapitlet og knyttes opp mot forskning og teori belyst i kapittel 2. Deretter diskuteres det hvilke begrensninger studien har, og hvor det kan være behov for videre forskning.

Oppgaven summeres i kapittel 6, med en konklusjon av problemstillingen.

## **2 Teori, bakgrunn og tidligere forskning**

I dette kapittelet vil de teoretiske rammene for oppgaven presenteres. Kapittelet har to hovedfunksjoner, hvilket er å gi et teoretisk fundament for å forstå fenomenet det forskes på, samt å belyse tidligere forskning. Først presenteres begrepet ‘variasjon i kroppslig kjønnsutvikling’, etterfulgt av en kort beskrivelse av de ulike diagnosene som er inkludert i studien. Dette inkluderes med formål om å gi en dypere forståelse av hvilke utfordringer barn og unge med en slik diagnose kan oppleve. Dernest presenteres begrepet livskvalitet, inkludert hvordan livskvalitet påvirker læring og utvikling diskuteres. Videre blir tidligere forskning på fagfeltet vedrørende barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling presentert. Avslutningsvis oppsummeres hovedfunn fra litteratursøk som ligger til grunn for utvikling av forskningsspørsmål.

### **2.1 Variasjon i kroppslig kjønnsutvikling**

Variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, også kalt differences/disorders of sex development (DSD) internasjonalt refererer til en rekke medfødte forhold som utvikler seg av at kromosomalt, gonadalt eller anatomisk kjønn er atypisk (Hughes, Houk, Ahmed & Lee, 2006). Begrepet variasjon i kroppslig kjønnsutvikling inkluderer en variert og kompleks gruppe tilstander, og er ofte assosiert med en synlig kjønns-annerledeshet ved fødsel, eller at det kan oppstå en inkongruens mellom de typiske mannlige eller kvinnelige ytre kjønnsorganer og den interne anatomien som kan oppdages ved puberteten eller i voksen alder (Warne og Raza, 2008; Feragen et al., 2019). Begrepet «interkjønn» er en norsk oversettelse av det engelske begrepet intersex, og er et paraplybegrep som viser til kroppslig mangfold blant personer født med atypiske kjønnskarakteristika (Sandberg, 2016). Det er viktig å spesifisere at variasjon i kroppslig kjønnsutvikling eller interkjønn ikke kan omtales synonymt med for eksempel transkjønnede personer. Transkjønnede eller transpersoner har en kjønnsidentitet som bryter med kjønnnet tildelt ved fødsel eller med tokjønnmodellen (kun to binære kjønn) (Amnesty International, 2018). Imidlertid har personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling et biologisk kjønn som kan bryte med forventninger til mann- og kvinnekropper (Feragen et al., 2019).

I følge van Lisdonk (2014) er det få personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling som omtaler seg selv som interkjønn. Flere av informantene i studien til van Lisdonk (2014) uttrykte sin misnøye med begrepet interkjønn, da de opplevde det som et begrep som samsvarte dårlig

deres opplevde kjønn. Flertallet identifiserte seg som enten mann eller kvinne, derfor var begrepet interkjønn upassende og reflekterte heller en mangel på kjønn. I studien til Feragen, Heggeli og Wæhre (2019) ga flere respondenter uttrykk for at de var fornøyd med begrepet «variasjon i kroppslig kjønnsutvikling». Likevel foretrakk et flertall av respondentene i studien til Feragen og kollegaer (2019) å referere til sin medisinske tilstand eller diagnose fremfor samlebetegnelser.

Begrepet «variasjon i kroppslig kjønnsutvikling» inkluderer både det medisinske- og det menneskerettslige perspektivet (van Lisdonk, 2014). I denne studien benyttes fortrinnsvis begrepet 'variasjon i kroppslig kjønnsutvikling' eller DSD som forkortelse, siden bruk av begrepet interkjønn ser ut til å være omdiskutert (van Lisdonk, 2014; Feragen et al., 2019).

### **2.1.1 Ulike tilstander representert i studien**

For å belyse hvilke utfordringer barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling kan oppleve, vil det bli gitt en kort beskrivelse av ulike tilstander og deres karakteristiske trekk. Tilstander som er inkludert er Turners syndrom, Klinefelters syndrom, medfødt binyrebarksvikt, hypospadi og androgent insensivitetssyndrom.

#### *Turners syndrom (TS)*

Hvert år blir omkring 15 jenter med Turners syndrom født i Norge (Feragen et al., 2019). Turner syndrom karakteriseres ved at hele eller deler av det ene X-kromosomet mangler. De mest konsistente trekkene er kortvoksthet og en feil i utvikling av eggstokkene, samt at puberteten ikke kommer av seg selv (McCarthy og Bondy, 2008). Vansker med psykologisk tilpasning og lærevansker har også blitt assosiert med Turner syndrom. Spesielt preges de av umodenhet, nedsatt konsentrasjon, økt aktivitetsnivå og dårlige forhold til jevnaldrende (McCauley, Ross, Kushner og Cutler, 1995).

#### *Klinefelters syndrom (KS)*

Klinefelters syndrom er en medfødt kjønnskromosomforstyrrelse hos gutter. Forekomsten er én per 660 fødte gutter (Frambu kompetansesenter, 2019). Ifølge Frambu kompetansesenter (2019) er tilstanden svært underdiagnostisert, men er samtidig den vanligste blant diagnosene som nevnes i dette kapittelet. Gutter eller menn med tilstanden har nedsatt eller manglende

produksjon av testosteron og sædseller, infertilitet eller nedsatt befruktningsevne er derfor en risiko (Feragen et al, 2019). Groth, Skakkebæk, Høst, Gravholt og Bojesen (2012) viser i sin metastudie at flere med Klinefelters syndrom har forsinket språkutvikling, herunder forsinket taleutvikling, redusert verbaliseringsevne, ordforråd, språkforståelse og vansker knyttet til nonverbal kommunikasjon. I tillegg til lærevansker knyttet til konsentrasjon, oppmerksomhet, aktivitetsnivå, redusert impuls kontroll og utholdenhet, samt passivitet og manglende motivasjon. Dessuten beskrives utfordringer assosiert med reduserte sosiale- og motoriske ferdigheter (Groth, et al., 2012)

### *Medfødt binyrebarksvikt (CAH – Congenital Adrenal Hyperplasia)*

Medfødt binyrebarksvikt (CAH) er en hormonforstyrrelse som skyldes en enzymsvikt i binyrebarken. Tilstanden fører til lav produksjon av kortisol og aldosteron, samt for høy produksjon av mannlig kjønnshormon (androgen) (Nermoen, Husbye, Myhre og Løvås, 2017). Forekomsten av CAH er beregnet til 1 av 16 000 nyfødte per år (Feragen et al., 2019). Symptomene varierer med alvorlighetsgraden av enzymsvikten. Et forhøyet androgennivå i fosterlivet kan påvirke utviklingen av de ytre kjønnsorganene, som kan føre til usikkerhet om hvilket juridisk kjønn barnet skal tildeles ved fødel. Barn født med CAH vil ha behov for medisiner gjennom hele livet, og trenger derfor nøye oppfølging av både lege, foreldre og ansatte i barnehage og skole (Senter for sjeldne diagnoser, 2019). Det vises også i forskning at pasientgruppen rapporterer om redusert livskvalitet og en rekke psykologiske utfordringer knyttet til tilstanden (Nermoen, et al., 2017).

### *Hypospadi*

Det beregnes at ca. 1 av 300 personer har hypospadi (Andersson et al., 2011; Vandendriessche et al., 2010). Det kjennetegnes ved en variasjon i posisjon av urinrørsåpningen, som befinner seg et sted mellom tuppen av penis og pungen. Det finnes ulike grader av hypospadi, og kun de mer alvorlige tilfellene klassifiseres som en variasjon i kroppslig kjønnsutvikling (Feragen et al., 2019). Flere studier viser at enkelte som har gjennomgått korrigerende operasjoner for hypospadi viser psykologiske avvik i form av økt sjenanse, engstelse og redusert toleranse for stress. I tillegg rapporterer flere at de avstår fra intime relasjoner (Rynja, de Jong, Bosch, de Kort, 2011; Schönbuncher, Weber, Landholt, 2008). Imidlertid lever de fleste et fullverdig liv.

## *Androgent insensivitetssyndrom (AIS)*

Personer med AIS har kromosommønster 46,XY og normal produksjon av mannlige kjønnshormon, men cellene i kroppen har manglende eller nedsatt følsomhet for mannlige kjønnshormon (androgener). AIS deles inn i to, der den ene tilstanden kjennetegnes ved en fullstendig ufølsomhet for androgener omtalt som CAIS (Batista, et al., 2020; Hughes og Deeb, 2006). Den andre tilstanden er preget av delvis ufølsomhet for androgener, omtalt som PAIS. AIS medfører varierende utvikling av kjønnsorganene, og derfor gi usikkerhet om barnets kjønn ved fødsel (Feragen et al., 2019). Ved CAIS blir den ytre kroppsutviklingen kvinnelig, og mistanke om diagnosen oppstår som regel ved uteblitt menstruasjon (Hughes og Deeb, 2006). Det kan også oppstå konflikter i forhold til kjønnsidentitet ettersom det mannlige kjønnshormoner er fraværende (Feragen et al., 2019). Det angis å være en til fem per 100 000 fødte barn som er rammet av androgent insensivitetssyndrom i Norge (Feragen et al., 2019).

## **2.2 Livskvalitet**

Ifølge Folkehelseinstituttet (2016) omfatter livskvalitet både subjektive og objektive sider ved livet. Subjektiv livskvalitet handler om hvordan livet oppleves for den enkelte, for eksempel positive følelser som ro og glede, og positive vurderinger av egen livstilfredshet. Positive følelser og vurderinger inkluderer også opplevelse av god fungering, herunder vitalitet, interesse, mestring og mening (Folkehelseinstituttet, 2016). Den objektive livskvaliteten omhandler hvor god livssituasjon man har, hvilket inkluderer objektiv helsetilstand og funksjonsevne, materielle levevilkår, arbeidsoppgaver og fritidssysler (Folkehelseinstituttet, 2016). Det er ingen entydig definisjon av barns velferd, trivsel og livskvalitet (Evensen og Løvgren, 2018). Likevel er det en oppslutning om at barns velferd har både materielle, fysiske, psykiske, kognitive og sosio-emosjonelle dimensjoner (Ben-Arieh et al., 2014; Bradshaw og Richardson, 2009). Ut ifra denne forståelsen handler barn og unges livskvalitet om hvordan barn og unge har det innenfor flere livsområder eller domener, som for eksempel på skolen, i hjemmet eller med venner. Hvilke domener man anser som viktigst for barns livskvalitet er kontekst- og tidsavhengig. Det er mange begreper som brukes synonymt omkring en subjektiv opplevelse av «å føle seg vel» eller å ha «et godt liv», blant annet trivsel, velvære, velbefinnende, lykke, mestring, livskvalitet og livstilfredshet (Tangen, 2012, s. 153). I denne oppgaven benyttes begrepene livskvalitet, livstilfredshet og trivsel som indikatorer på «å føle seg vel», og forstås i lys av konteksten det blir presentert i.



### **2.2.1 Livskvalitet og dets betydning for læring og utvikling**

Per i dag finnes det ikke helhetlig informasjon om livskvaliteten blant barn og unge i Norge. Imidlertid inkluderte rapportene fra Ungdata og HEVAS (Bakken, 2017; Samdal et al., 2016) enkeltspørsmål om hvorvidt barn og unge er fornøyde med livet i sin helhet, med foreldre, venner, skole, helse og nærmiljø. Resultatene fra Ungdata og HEVAS rapportene forteller oss at livskvaliteten til barn og unge i Norge er forholdsvis stabil og god (Bakken, 2017; Samdal et al., 2016). Resultater fra HEVAS (Samdal et al., 2016) viser at fra 2010 til 2014 var det en liten øking i andelen som oppgir at de er svært tilfreds med livet. Ungdata-tall fra 2015 til 2017 registrerer at flere enn tidligere opplever tette relasjoner til foreldre, og at flere er fornøyde med foreldrene sine sammenlignet med tidligere målinger (Bakken, 2017). Rapportene viser at over 90 % av ungdommer oppgir at de trives på skolen. Imidlertid viser rapportene kjønnsforskjeller, der gutter er generelt mer tilfreds med livet enn jevnaldrende jenter, likevel synker tilfredsheten rundt 11-16 års alder for begge kjønn. Funnene i rapportene belyser at sosioøkonomisk status har påvirkning på livstilfredsheten, der anstrengt økonomi er relatert til lavere livstilfredshet.

Folkehelseinstituttet (2016) påpeker at det er lite kunnskap om livskvaliteten til barn og unge som lever med ulike sykdommer, psykiske lidelser og funksjonsnedsettelse. Selv om hovedandelen av elevene oppgir å være tilfreds med både eget liv og skolehverdagen, er det viktig at dette ikke overskygger de som faller utenfor og ikke trives. En utfordring med subjektive mål på livskvalitet er et barn med til dels ulike levekår og livssjanser tilpasser seg de livsvilkårene de lever under. Derfor kan barn og unge som vokser opp under ulike objektive leveforhold, fremstå som like fornøyde som de med gode levevilkår (Barstad, 2014).

Barns psykiske helse påvirker deres muligheter for læring og utvikling, så vel som læringsmiljøet har betydning for barns psykiske helse (Helsedirektoratet, 2015). Barn og unges trivsel og helse er vektlagt som viktige faktorer for å fremme læring både i Stortingsmelding 30 (2003-2004) og Stortingsmelding 31 (2007-2008). Videre lovfester opplæringslova § 9A-2 (1998) at alle ansatte i skolevirksomheten skal følge med på om elevene har et trygt og godt skolemiljø som fremmer helse, trivsel og læring. § 9 A-3 inkluderer en nulltoleranse mot krenking som mobbing, vold, diskriminering og trakassering. Dette for å fremme et godt psykososialt miljø der elevene kan oppleve trygghet og sosial tilhørighet (Opplæringslova, 1998, § 9 A-4).

Meld. St. 19 (2014-2015): Folkehelsemeldingen: *Mestring og muligheter*, viser til barnehagens- og skolens rolle og ansvar i å fremme trivsel, mestring og livskvalitet. Barns velferd og livskvalitet er viktig i barnehage og skole, sosiale situasjoner og i familien, i tillegg til at det har en sammenheng med ulike utfall senere i livet (Elstad og Pedersen 2012; Goodman, Robert og Smith 2011). Regjeringa vektlegger tidlig innsats som avgjørende for god folkehelse (Meld. St. 19, 2018-2019). Videre presiseres det at god kvalitet i barnehage, skole og skolefritidsordninga er nødvendig for å sikre læring, trivsel og helse. Dette er spesielt viktig for barn med psykiske helseplager og/eller sammensatte vansker som følge av sykdom eller utviklingshemming, også i forhold til å redusere mulig skjevutvikling. Kvalitetssikring av barnehage, skole og skolefritidsordninga inngår i arbeidet med tidlig innsats (St. Meld. 19, 2018-2019).

Den nye læreplanen poengterer at skolen skal legge til rette for læring ved å inkludere folkehelse og livsmestring som et av de nye tverrfaglige temaene (Utdanningsdirektoratet, 2020). Ved å inkludere folkehelse og livsmestring som tverrfaglig tema i skolen tar læreplanen sikte på å gi elevene kompetanse som fremmer god psykisk og fysisk helse, samt at det gir muligheter til å ta ansvarlige livsvalg. Særlig utvikling av et positivt selvbilde og en trygg identitet, er avgjørende i barne- og ungdomsårene (Utdanningsdirektoratet, 2020), og er trolig spesielt avgjørende for barn med kjønnsvariasjoner. Læreplanens fokus på livsmestring dreier seg om å kunne forstå og påvirke faktorer som har betydning for mestring av eget liv, herunder hvordan elever kan håndtere medgang og motgang, samt personlige og praktiske utfordringer på en hensiktsmessig måte (Utdanningsdirektoratet, 2020). Læreplanen trekker frem fysisk og psykisk helse, levevaner, seksualitet og kjønn, rusmidler, mediebruk og personlig økonomi som relevante områder (Utdanningsdirektoratet, 2020).

Barn som bryter med normer for kjønn opplever dårligere livskvalitet enn andre barn (Redd barna, 2020). Redd barna (2020) hevder at dette er relatert til måten barna som bryter med samfunnsnormer blir behandlet på; mobbing, stigmatisering, vold, trakassering og lignende. Samt at barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er i større risiko for å utvikle dårligere psykisk og fysisk helse.

God kvalitet i barnehage og skole legger ikke kun til rette for læring, men også livsmestring, samfunnsdeltakelse og likeverd, samt at det vil bidra til å motvirke diskriminering og

utenforskap (St. Meld. 19, 2018-2019). Hvilket er essensielt for å sikre psykososial helse og trivsel hos barn med kjønnsvariasjoner.

### **2.2.2 Tolkning av livskvalitet og skoletilfredshet**

Tangen (2012, s. 152) påpeker at *skolelivskvalitet*, altså kvaliteten på elevenes subjektive oppfatning til skolens verdi og trivsel, ikke kan ses isolert fra andre sider av elevenes liv. For å forstå hvordan elevene trives i skolen må derfor hele livssituasjonen til barn og unge tas i betraktning. Det finnes ulike teorier som søker å forklare generell livskvalitet, de skiller ofte mellom påvirkning fra forhold utenfor individet, og tilstander hos individet (Næss, i Tangen, 2012, s. 153). I spesialpedagogisk praksis er det en fordel å benytte begge tilnærmingene.

Både livskvalitet og trivsel i skolen, så vel som trivsel i barnehage, må ses i en større kontekst. For eksempel Bronfenbrenners utviklingsøkologiske modell, som forklarer utvikling og vekst som gjensidige påvirkningsprosesser mellom individ og miljø (Bronfenbrenner, 1979). Teorien forklarer hvordan faktorer både i nærmiljøet og storsamfunnet har betydning for å oppnå helse og trivsel i befolkningen (Mittelmark, 2012). Teorien forklarer hvordan sosiale interaksjoner formes og påvirkes av et gjensidig samspill mellom fire samfunnssystemer, omtalt som mikro-, meso-, ekso- og makrosystemene (Wold, 2012). Både storsamfunnet, lokalsamfunnet, nettverk, individuelle forhold og medfødte faktorer påvirker utvikling og opplevelse av helse og trivsel (Furlong, Gilman og Huebner, 2014). Med utgangspunkt i definisjonen av livskvalitet nevnt innledningsvis i kapittelet er det naturlig å ta utgangspunkt i en slik forklaringsmodell, når vi skal vurdere livskvalitet og hvilke faktorer som henger sammen med og påvirker livskvaliteten hos barn og unge.

Imidlertid belyser selvbestemmelsesteorien at for å oppleve god trivsel, herunder positiv utvikling og vekst, er det nødvendig at grunnleggende behov for tilhørighet, kompetanse og autonomi er tilfredsstilt (Ryan og Deci, 2000a). Teorien understreker at behov for å oppleve å høre hjemme og evne til å skape stabile og gode mellommenneskelige bånd, samt behov for selvbestemmelse og innflytelse vedrørende egne behov og egen atferd som essensielt for livskvalitet. Dersom disse behovene ikke blir tilfredsstilt, vil opplevelse av trivsel og velvære bli svekket (Deci og Ryan, 2000b).

Livskvalitet og trivsel i barnehage og skole vil i denne oppgaven ses i lys av den utviklingsøkologiske modellen og selvbestemmelsesteorien for å utdype hvordan både sosiale og individuelle faktorer kan påvirke trivsel hos barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling.

### **2.3 Tidligere forskning om psykososial utvikling og livsmestring hos personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling**

Variasjon i kroppslig kjønnsutvikling omfatter et bredt spekter av alvorlighetsgrad, der det overordnede målet for behandling og omsorg er å sikre god livskvalitet (Nordenström, 2015). Forskningsfeltet omkring variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er preget av manglende evidensbasert kunnskap (Feragen et al., 2019; Nordenström, 2015). Til tross for at det har blitt publisert flere studier om psykososial situasjon og livskvalitet de siste tiår, viser resultatene store variasjoner på tvers av studier og landegrenser (Nordenström, 2015; Roen, 2019). Det er en rekke studier utført på voksne med ulike kjønnede variasjoner, der resultatene antyder generell god livskvalitet (Amaral et al., 2015; Kanhere et al., 2015; Kleinemeier et al., 2010; Wang og Tian, 2015). Imidlertid belyser andre studier nedsatt livskvalitet og økt grad bekymringer hos foreldre (Falhammar et al., 2014; Nordenström et al., 2010; Schober et al., 2012; Stikkelbroeck et al., 2003; Ali et al., 2020). Studier er ofte rettet mot DSD-utfall i form av kjønnsidentitet, kjønnsrolle, seksuell legning og kirurgiske utfall, men det ser ut til at interessen for å undersøke det psykososiale aspektet rettet mot både foreldre og barn er økende (Ali et al., 2020). Imidlertid er de fleste studiene som ble identifisert via litteratursøk rettet mot den voksne DSD-gruppen, kunnskap om psykososiale forhold og livskvaliteten for barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er fremdeles noe begrenset (Nordenström, 2015).

Metastudien til Bukowski, McCauley og Mazur (2015) poengterer en rekke utfordringer som kan forstyrre vellykket sosial og emosjonell utvikling hos barn og unge med kroppslige kjønnsvariasjoner. Utfordringer knyttet til det medisinske, herunder spørsmål om infertilitet, operasjoner, hormoneksponering (pubertet), samt livslang oppfølging av helsepersonell blir satt i fokus. Forskergruppen hevder at utfordringene kan prege både den kognitive og atferdsmessige utviklingen, ettersom slike utfordringer ikke er ansett som en del av den normale utviklingsbanen for barn og unge. Derfor kan slike utfordringer føre til vanskeligheter i forhold

til læring, livskvalitet og psykososial helse (Bukowski et al., 2015). Metastudien til Bukowski og kollegaer (2015) fremhever sosial og emosjonell utvikling som en noe utsatt prosess og poengterer at barn og unge med fysiske, atferdsmessige eller utviklingsmessige forskjeller ikke nødvendigvis har like stort utbytte av interaksjon med jevnaldrende som andre barn (Bukowski et al., 2015).

Gitt deres forskjeller fra andre barn, kan de grunnleggende prosessene for vellykket sosial og emosjonell utvikling være mer utfordrende for barn med DSD-tilstander enn for sine jevnaldrende (Bukowski et al., 2015).

Vellykket sosial og emosjonell utvikling består i stor grad av å håndtere personlige og mellommenneskelige oppgaver, slik som evne til å tilegne seg ferdigheter og kompetanse, regulering av atferd og følelser, evne til å tilfredsstille ønsker og mål, samt lære hvordan man kan fungere i sosiale relasjoner i grupper og i nære relasjoner (Bukowski, Li, Dirks og Bouffard, 2012). Bukowski og kollegaer (2015) argumenterer for at kravene for vellykket utvikling kan være utfordrende for barn og unge med DSD på grunn av forskjellene i fysisk utseende og variasjonene i utviklingshistorien som de har med seg inn i de sosiale interaksjonene med jevnaldrende, i tillegg til eventuelle fysiske, somatiske og mentale utfordringer tilstanden kan bringe. Videre poengterer forskergruppen at mangel på slike normale opplevelser kan sette barn med DSD-tilstander i fare for å falle i atypiske utviklingsbaner når det gjelder sosial fungering og selvutvikling (Bukowski et al., 2015). Bukowski et al (2015) fremhever en følelse av å være annerledes fra jevnaldrende, stigmatisering, angst som følge av tilstanden, og selvvalgt isolasjon eller ekskludering fra jevnaldrende som risikofaktorer for den sosiale og emosjonelle utviklingen. Antakelsene som blir gitt i studien til Bukowski og kollegaer reflekteres i flere studier, der stigmatisering, angst, hemmelighold og isolasjon er noe som går igjen i DSD-gruppen (Payne og Smith, 2011; Adelman og Woods, 2006; Feragen et al., 2019).

En metastudie utført av Stout, Litvak, Robbins og Sandberg (2010) tar for seg 98 originale forskningsstudier, publisert mellom 1955 og 2009, der målet var å undersøke psykologiske vansker hos personer med medfødt binyrebarksvikt (CAH). Imidlertid var et flertall av studiene relatert til psykoseksuell differensiering, herunder kjønnsrolle, kjønnsidentitet og seksuelle legning, fremfor psykologiske og psykososiale faktorer som atferdsmessig og emosjonell fungering, og helserelatert livskvalitet. Metastudien viser en rekke ulike utfordringer knyttet til

androgeneksponering, slik som angst, PTSD<sup>1</sup>, redusert selvbilde, og rolle- eller kjønnsforvirring. De psykologiske resultatene var stort sett tilskrevet som direkte effekter av prenatal androgeneksponering, og effekt av sosial opplevelse og faktorer i miljøet ble i stor grad oversett som mulige årsaker (Stout et al., 2010).

En studie av helse relatert livskvalitet hos barn med DSD fant at sammenlignet med kontrollgruppen hadde pasientgruppen betydelig lavere total skåre på livskvalitet og skolefunksjon (Selveindran, Zakaria, Jalaludin og Rasat, 2017). Studien viser at skåren for eksterne og internaliserende vansker var betydelig høyere for barn med DSD sammenlignet med kontrollgruppen (Selveindran et al., 2017). Eksterne vansker refererer til opposisjonell atferd slik som aggressivitet, regelbrytende atferd, i tillegg til konsentrasjonsvansker og hyperaktivitet, hvorav internaliserte vansker refererer til angst, tilbaketrukkethet, depresjon eller somatiske plager (Nøvik, 2000). Analysen avdekket at barna hadde betydelig dårligere resultat knyttet til depresjon, angst og sosiale relasjoner i forhold til kontrollgruppen (Selveindran et al., 2017). Det ble også identifisert forskjeller mellom kjønn, der jentegruppen hadde høyere skåre enn guttene, imidlertid var tallene ikke av signifikant betydning. Selveindran og kollegaer (2017) konkluderer med at barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling hadde nedsatt livskvalitet sammenlignet med den alderstilpassede kontrollgruppen, og poengterer behovet for et dyktig flerfaglig team for å styrke denne gruppen.

En studie målte helse relatert livskvalitet med PedsQL som oppfølging etter medisinsk intervensjon (Crawford, Warne, Grover, Southwell og Hutson, 2009). Både foreldre og barn ble inkludert i studien, der resultatene indikerte at fysisk livskvalitet var tilnærmet lik verdien som for sunne barn, med unntak av guttene, som hadde noe lavere fysisk livskvalitet. Studiens funn viser at barnas psykososiale livskvalitet var lavere enn hos kontrollgruppen. Det var noe forskjeller mellom kjønn, der guttene lå lavere enn jentene i gjennomsnitt på livskvalitet, men dette var ikke av signifikant betydning. Studien indikerer også at det var noe variasjon i atferd, der barna ikke viste en spesifikk kjønnsrolleatferd, men at det ikke var noen utpreget alvorlig risiko for kjønnsidentitetsforstyrrelse (Crawford et al., 2009).

En rekke andre studier (Mureau, et.al., 1997; Mondaini, et.al., 2002; Sandberg, et.al., 2001) viser ingen øking i psykologiske problemer hos gutter som har gjennomgått en kirurgisk

---

<sup>1</sup> PTSD: Post traumatisk stress lidelse

operasjon av hypospadiene. Imidlertid viser studien til Sandberg et al. (2001) tegn til internaliserte vansker, og at dette var forbundet med større medisinske intervensjoner. I tillegg var funn knyttet til utseende assosiert med dårligere skolefunksjon. En studie av Schönbuncher, Weber og Landolt (2008) viste at gutter med hypospadi i alderen 7-17 år, hadde få psykiske plager, men signifikant mindre positiv livskvalitet enn gutter i samme aldersgruppe som hadde gjennomgått brokkreparasjoner. Forskergruppen konkluderer med at funnene relatert til psykososial og psykoseksuell (kjønnsidentitet, seksuell orientering, kjønnsroller) tilpasning var uklare og inkonsistente, men at enkelte faktorer påvirket livskvaliteten deres negativt (Schönbuncher et al., 2008). De faktorene som ble assosiert med lavere livskvalitet inkluderte deres oppfatning av penis, rapportert skamnivå og opplevelse av å få mange spørsmål omkring sin egen penis av jevnaldrende. Forskergruppen poengterer at det er nødvendig å identifisere psykososiale risikofaktorer for å kunne garantere et omfattende og godt behandlingstilbud for gutter med hypospadi (Schönbuncher et al., 2008).

En evaluering av 59 barn med varierte DSD-tilstander, rapporterte at 39% ble vurdert til å ha betydelige psykiske problemer sammenlignet med 20% som var forventet i befolkningen (Slijper et al., 1998). Studien til Slijper et al. (1998) viste at til tross for tidlig kjønnskorrigerende operasjoner og tildeling av kjønn (før de var 1 år), viste flere av barna i studien tendens til psykologiske og psykososiale utfordringer, hvorav 39% av barna utviklet alvorlig psykiske lidelser. Kun i 53% av tilfellene fikk informantene konsultasjon av psykolog for å hjelpe pasientene og deres foreldre med å takle tilstanden. Psykologiske problemer var dobbelt så utbredt blant barna som ikke mottok hjelp med en gang diagnosen hadde blitt satt (Slijper et al., 1998). På den måten virker det som at tidlig veiledning hadde en forebyggende effekt, selv om det ikke kunne hindre alle barna i å vise tegn på psykiske lidelser. Studien viser også til generell rolleforvirring og usikkerhet knyttet til identitet, 13% utviklet en kjønnsidentitetsforstyrrelse og 2% kunne ikke akseptere det tilgitte kjønn. Kjønnsidentitetsforstyrrelse og avvikende kjønnsrolleatferd var kun funnet hos jenter. Slijper et al. (1998) hevder at både biologiske og sosiale faktorer er ansvarlig for utvikling av kjønnsidentitetsforstyrrelser.

Funnene i studien til Slijper et al (1998) støttes i en litt nyere undersøkelse av Jürgensen og kollegaer (2014), hvor resultatene viste signifikante forskjeller mellom barn med DSD og kontrollgruppen i helserelatert livskvalitet. Studien viser at barn med DSD-tilstander hadde betydelig lavere selvtillit, svakere følelse av fysisk velvære og dårligere skolefunksjon enn

kontrollgruppen (Jürgensen, Lux, Wien, Kleinemeier, Hiort og Thyen, 2014). Spesielt jenter med CAH som opplevde kjønnsdysfori, hvor kjønnsorgan og egen opplevelse av kjønnsidentitet ikke samsvarer, rapporterte lavere livskvalitet. Området for selvtillit, fysisk velvære og skolefunksjon var betydelig nedsatt for jenter med CAH. Studien konkluderer med at psykososial støtte av barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling og deres familier ser ut til å være nødvendig i det minste i enkelte tilfeller, samt at det må være tilgjengelig for alle pasienter (Jürgensen et al., 2014). Også studien til Herlihy og kollegaer (2011) av gutter og menn med Klinefelters syndrom viser at nedsatt psykososial helse kunne forbindes med subjektiv trivsel, selvtillit, kroppsbilde, kognitive- og atferdsmessige vansker, mental- og generell helse. Forskning viser at særlig det å bygge opp et positivt selvbilde kan være utfordrende for personer med DSD-tilstander (Carel et al., 2006; Fjermestad et al., 2016; van de Grift et al., 2018; Sandberg, 2017). Studier viser at både jenter med Turners syndrome og gutter med Klinefelter syndrom viser et signifikant mindre positivt kroppsbilde og lavere selvtillit enn kontrollgruppene (Cragg og Lafreniere, 2010; Herlihy et al., 2011). Fjermestad et al., (2016) poengterer at lavere kropps- og selvbilde er assosiert med psykiske utfordringer og nedsatt trivsel. At barnet opplever støtte i miljø som skole, barnehage og hjemmet ser ut til å ha positiv innvirkning på barnets selvtillit (Herlihy et al., 2011).

En nederlandsk studie viser at personer med DSD tilstander kan streve med å akseptere tilstanden sin (van Lisdonk, 2014). Til tross for at informantene hadde en tydelig kjønnsidentitet, fryktet flere at personer i deres miljø eller samfunnet ikke anså dem som helt mannlig eller kvinnelig (Van Lisdonk, 2014). Flere rapporterte at det var vanskelig å være åpen om tilstanden til andre, som også bekreftes i andre studier (Van Lisdonk, 2014; Jones, 2016; Feragen et al., 2019). Flere informanter i studien til Feragen og kollegaer (2019) beskriver åpenhet som krevende, særlig fordi det ofte er knyttet til vanskelige følelser som skam og flauhet. Både studien til Van Lisdonk (2014) og Feragen og kollegaer (2019) viser til hemmelighold og skam omkring tilstanden, som vil kunne påvirke mulighetene til å danne meningsfulle forhold, som venner og kjærester. Frykt for å bli avvist og frykt for negative reaksjoner, som ville gi en følelse av å være annerledes, ensom og misforstått, blir fremhevet som årsaker til hemmelighold om tilstanden i flere studier (Jones, 2016; Van Lisdonk, 2014; Feragen et al., 2019; Ernst et al., 2016). Van Lisdonk (2014) konkluderer med at livssituasjonen til personer med DSD-tilstander påvirker personenes deltakelse på viktige arenaer som utdanning, arbeidsliv og i fritidsaktiviteter.



I 2019 ble den første norske undersøkelsen om livssituasjonen til personer med DSD-tilstander ferdigstilt av Feragen, Heggeli og Wæhre. Utenom denne finnes det lite norsk forskning om temaet. Studien er basert på 46 kvalitative intervjuer med personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, samt foreldre til barn i gruppen (Feragen et al., 2019). Funnene viser at flertallet beskriver sin livskvalitet som god, men en del opplever eller har opplevd psykisk sårbarhet. Flere av informantene hevder at deres DSD-tilstander har påvirket selvbilde, kroppsbilde, tilfredshet med egen seksualitet og deres psykiske helse. Informantene beskriver særlig skolealderen som utfordrende (Feragen et al., 2019).

Internasjonal forskning viser at unge med kjønnsidentitetstematikk er oftere utsatt for diskriminering og krenkende opplevelser som mobbing og vold (van der Ros, 2013). Forskning viser til en høy forekomst av selvmordsforsøk, og psykiske lidelse blant unge med kjønnsidentitetstematikk, samt nedsatt livskvalitet (Darj og Nathorst-Böös, 2008; Jones, 2016; Karkazis, 2008; Grossman og D'Augelli, 2006; Redd Barna, LLH & Skeiv ungdom, 2016). Skolehverdagen beskrives som den mest traumatiske delen av oppveksten i studien til van der Ros (2013) ofte som følge av reaksjoner fra omgivelsene knyttet til kjønnsuttrykk.

Et flertall av studiene som har blitt presentert understreker at tilstandene påvirker på flere aktuelle arenaer, og poengterer derfor et behov for oppfølging og tilrettelegging for å ivareta fysisk og psykisk helse. I Stortingsmelding 19 (2014-2015) står det at flere skal oppleve god psykisk helse og trivsel ved å sikre godt behandlingstilbud og sterkere forebyggende arbeid. Imidlertid poengteres det at det må rettes mer oppmerksomhet mot levekår, barnehager, skole- og læringsmiljø.

## **2.4 Forskning som fremhever utfordringer for barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i skolen**

Vilkin og kollegaer (2020) hevder at skolebaserte programmer for grunnskole og videregående med fokus på ulike seksuelle orienteringer og kjønnsidentiteter er relatert til mindre av mobbing og bedre mental helse for LHBTQ-elever<sup>2</sup>, men at det er lite kjent hvordan de skal implementere slike programmer for barneskoler. Studien er blant de første til å undersøke hvordan en kunstbasert læreplan som omfatter ekspansiv (bredere) forståelse av kjønn, var relatert til barns

---

<sup>2</sup> LHBTQ er en felles betegnelse for lesbiske, homofile, biseksuelle, transpersoner og 'queer' (de som faller utenfor den normative forståelsen av to kjønn).

kjønns holdninger og livssyn. Åttitre elever i et etter-skole-program i California fikk spørsmål om tro og holdninger til et slikt skoleprogram (Vilkin et al., 2020.) Etter å ha fulgt læreplanen rapporterte flere elever om sitt kjønn i ekspansive termer, det ble også observert spesifikke endringer i elevenes kjønnsnormer, samt at holdningene ble mer positive til dem som deltok i kjønnsekspressive roller, aktiviteter og antrekk (f. eks. en gutt som tar på seg rolle som 'mor' i lek.). Resultatet fra studien tyder på at kjønnsfokuserede kunstbaserte læreplaner kan være forbundet med økt bevissthet om kjønnsnormer, samt vide ut den smale og normative forståelsen av kjønn, og mer positive holdninger til kjønnsekspressive roller, aktiviteter og antrekk (Vilkin et al., 2020).

En av de få studiene som er gjennomført for å undersøke hvordan skolen oppleves for barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er utført av Jones (2016) i Australia. Utvalget bestod av 272 personer med DSD-variasjoner, i aldersspennet 16 til 87 år. Av 176 deltakere som besvarte spørsmål om trivsel i studien til Jones (2016), rapporterte flere deltakere å ha utfordringer knyttet til selvmord-og selvskadingstematikk på grunn av spørsmål knyttet til å ha en kroppslig kjønnsvariasjon fra jevnaldrende. Særlig kvinner med PAIS hadde kontinuerlige selvmordstanker. Flere respondenter fremhevet distanse fra mennesker med samme eller lignende variasjoner, isolasjon på grunn av stigmatisering eller diskriminering, familieavvisning og mobbing på skolen fra jevnaldrende og lærere som avgjørende elementer for deres psykososiale og psykiske helse.

Det var også rapportert et høyere antall frafall fra skolen hos elever med DSD-tilstander enn hva som anses som normalt i befolkningen (Jones, 2016). Deltakerne i studien gikk ofte på skoler der diskusjoner eller samtaler omkring variasjoner av kjønn var fraværende i undervisningen og skolemiljøet, rapporteres det om manglende oppfølging av skolerådgivere i forhold til sine tilstander. Et flertall av de som droppet ut av skolen rapporterte dette rundt 12-15 års alderen, som vil si; i løpet av årene som er mest assosiert med pubertet og hormonbehandlingstiltak, som kan tenkes å ha vært en av årsakene. Imidlertid viste flertallet av deltakerne i studien til mobbing og diskriminering som årsak til skole-fracfall (Jones, 2016).

Mobbing blir belyst som et utbredt problem i studien til Jones (2016). 77 av deltakerne hadde blitt utsatt for mobbing i varierende grad, alt fra frekke spørsmål og navnekalling til fysisk vold og trakassering som krevde intervensjoner fra skolens ansatte eller familien. Mobbing er generelt ansett som en reell risikofaktor som påvirker både trivsel i skolen, skoleprestasjoner og barns livskvalitet og velbefinnende (Rees, 2017; Gilman og Huebner, 2003; Turner et al.,

2015). Mobbingen kunne oppstå på bakgrunn av atypiske kjønnskarakteristika eller at den kroppslige kjønnsvariasjonen hos eleven var kjent for andre elever og ansatte (Jones, 2016). Imidlertid var mobbingen ofte rettet mot uvanlige trekk som følge av kjønnsvariasjonen f. eks. kortvoksthet, mangel på energi, mangel på faglig og sosial utvikling eller lærevansker (Jones, 2016). I studien til Feragen og kollegaer (2019) forteller flere informanter om manglende utholdenhet og redusert stressmestring. Særlig informanter med Turner og Klinefelters syndrom forteller om lærevansker og/eller sosiale vansker, som vil kunne påvirke læring og utvikling i barnehage og skole.

Forskning indikerer at barn og unge som ikke passer i den normative forståelsen av kjønn lider av diskriminering, mobbing og ekskludering, ofte på grunn av deres ikke-normative kjønnspresentasjon (Van der Ros, 2013; Feragen et al., 2019; Redd Barna, LLH og Skeiv ungdom, 2016; Kosiw, Greytak, Palmer og Boesen; 2014; Grant et al., 2011; NOU, 2019:19).

I følge en annen undersøkelse som analyserte klimaene på skolens område, opplevde kjønnskspansive barn og unge syv ganger større sannsynlighet enn sine jevnaldrende for å oppleve trakassering på grunn av deres identitet (Rankin, Weber, Blumenfeld og Frazer, 2010). Forskergruppen hevder videre at det er en epidemi av «kjønnsbinaritet» (kun aksept for to kjønn) som påvirker elever på landsbasis, men til tross for dette har få skoler innarbeidet kjønnsinkluderende læreplaner eller pedagogisk praksis på noen som helst måte (Rankin et al., 2010).

I Norges offentlige utredninger (NOU, 2019) «Jenterom, gutterom og mulighetsrom» konstateres det at barn lærer om kjønnsstereotyper i småbarnsfasen. Det påpekes i utredningen at hva barna lærer om kjønn i barnehagen kan få betydning kan legge begrensninger for hvilke muligheter de ser for seg selv. Barn som bryter med normer for kjønn kan være sårbare i barnehagen, da det er i løpet av de første leveårene de lærer forskjeller mellom gutter og jenter, samt at de blir mer bevisst på sitt eget kjønn og kjønnsidentitet. Utredningen poengterer at det er forventningene og bekræftelsene de får som danner grunnlag for deres kjønnsidentitet og eventuell følelse av å ikke passe i den normen det forventes av dem. Derfor vektlegger regjeringen i NOU (2019) at barnehagen som arena ikke skal lære barna tradisjonelle normer for kjønn ved å at gutter og jenter blir møtt ulik. En mer kjønnsbevisst pedagogisk praksis, samt bevissthet om kjønns mangfoldet som finnes blant barn fremheves, samt at det foreligger et forslag om kompetanseheving rettet mot likestilling av kjønn inkludert i utdanning.

En evaluering av hvordan rammeplanen i barnehagen ble brukt, viser at barnehageansatte arbeider lite systematisk med kjønn og likestilling i barnehagen (Østrem et al., 2009). En svensk doktorgradsavhandling skrevet av Eidevald (2009) fant at barnehageansatte hadde kjønnsstereotypiske forventninger til gutter og jenter, og at forventningene hos de ansatte formet møtet med jenter og gutter i ulike situasjoner. Dette fremhever og opprettholder en normativ og smal forståelse av kjønn, som kan gjøre det vanskeligere å ta kontakt med andre voksne i barnehage og skole når det gjelder slike tilstander. Imidlertid har dette trolig en sammenheng med manglende kunnskap om variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. I studien til Feragen et al., (2019) kommer det tydelig frem at det er manglende kunnskap om variasjoner i kroppslig kjønnsutvikling både i de lokale instansene, som helsevesen og skole og i samfunnet generelt.

Funk og Funk (2017) hevder at pedagogikken per i dag er preget av en kjønnsfri eller kjønnsblind fremgangsmåte. Lærere som ikke utfordrer den binære<sup>3</sup> kjønnsforståelsen i klasserommet kan utilsiktet sende en melding gjennom stillheten om at de heller ikke er imot kjønnsidentitetsbasert mobbing og diskriminering (Funk og Funk, 2017). Dermed blir det stadig viktigere å oppdage metoder som kan bli brukt for å gjøre elever og pedagogisk personell oppmerksom på det vide «kjønsspekteret» vi har, for å redusere diskriminering, stigmatisering av og vold/mobbing mot kjønnssekspansive barn (Funk og Funk, 2017).

Manglende kompetanse om og lite forståelse for ulike kjønnsuttrykk på arenaer som skole og barnehage, helsevesen og andre offentlige instanser, samt måten de ble møtt på i skole- og helsevesenet oppleves ofte som lite tilfredsstillende (Darj og Nathorst-Böös, 2008; van der Ros, 2013). Funnene i rapporten til van der Ros (2013) indikerer at manglende kompetanse i offentlige instanser har alvorlige følger, som intoleranse, diskriminering, ekskludering fra jevnaldrende, stigmatisering og trakassering. Med frykt for avvisning og mobbing valgte mange informanter i studien til van der Ros (2013) å ikke være åpen om tilstanden sin. Å oppleve avvisning og mobbing påvirker barns skoleprestasjoner, livsvilkår og livskvalitet (Rees, 2017; van der Ros, 2013). Imidlertid viser studier at undertrykkelse av eget kjønnsuttrykk kan knyttes til dårligere skoleprestasjoner, frafall fra skolen, samt selvskading og selvmord (Kennedy og Hellen, 2010). En konsekvens av at ulike variasjoner av kjønn er usynlig i skolen er at det kan forsterke en følelse av å ikke passe inn, samt at det blir vanskelig å henvende seg til

---

<sup>3</sup> Binær kjønnsforståelse referer til to-kjønn modellen: Kun aksept for to kjønn, mann og kvinne.

voksenpersoner i skolen. Van der Ros (2013) hevder at heteronormen blir sterkere, og på grunn av dette sliter mange med å stille spørsmål om seksualitet og kjønn i en skolehverdag hvor det å ikke passe inn i heteronormen ofte er grunnlag for mobbing og utestenging. Rapporten viser at det er svært begrenset toleranse for å være annerledes blant medelever.

Lærere, psykisk helsevern og helsepersonell, har ofte begrenset informasjon og/eller opplæring angående kjønn, barn med variasjon i kjønnsutvikling, og praksis som tar sikte på å fremme inkludering av kjønn i utdanningsmiljøer. Forsøkene på å utdanne studenter angående kjønnsinkluderende praksis i klasserommene blir ofte møtt med en heteroseksuell, kjønnsbinær, og kjønnsnormativ majoritet (Luhmann, 1998). Behovet for inkludering av kjønn i læreplanen er påvist gjennom mobbingen som er rettet mot transpersoner, kjønnskspansive unge, og de som faller utenfor den normative fremstillingen av kjønn (Redd Barna, LLH og Skeiv ungdom, 2016).

## **2.5 Oppsummering av funn fra litteratursøk og utvikling av forskningsspørsmål**

Funnene i tidligere forskning er noe inkonsistent. Enkelte studier viser at livskvaliteten til personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er god, hvor andre viser at livskvaliteten er noe nedsatt. Funnene indikerer imidlertid at det er noen kjønnsforskjeller. Samt viser studier at barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling har en mindre optimal psykososial situasjon og belyser sosial- og emosjonell utvikling som risikoområder.

Lavere livskvalitet knyttes ofte til egen oppfatning av kjønnsorgan/utseende, skam, lavere selvtillit, nedsatt fysisk velvære og kroppsbilde. I tillegg er det fokus på sosial fungering og skolefunksjon i noe av litteraturen, og at dette ofte er nedsatt. Forskning viser at frykt for å bli avvist, skamfølelse, frykt for negative reaksjoner, usikkerhet knyttet til identitet, avvikende fysisk og kognitiv utvikling er avgjørende faktorer for livskvalitet og skoletrivsel. Videre illustreres mobbing, trakassering og diskriminering som eventuelle risikofaktorer for både sosial- og skolemessige funksjoner, så vel som livsmestring og livskvalitet.

Med utgangspunkt i forskningen som har blitt presentert, er det noen forskningsspørsmål som ligger til grunn for å belyse problemstillingen:

- I. Er det ulikheter i rapportert livskvalitet hos barn, fordelt på ulike aldersgrupper?
- II. Er livskvalitet hos barn med DSD forskjellig mellom kjønn?
- III. Hvilke faktorer viser sterk sammenheng med den totale livskvalitetsskåren hos barna?
- IV. Hvilke faktorer har sterk sammenheng med barnets fungering i skole og barnehage?

## 3 Metode

Studien bygger på datainnsamlinger i form av spørreskjemaer innhentet i prosjektet: «Livssituasjonen for personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i Norge» i regi av Barne-, ungdoms-, og familiedirektoratet og Senter for sjeldne diagnoser. Derfor omtales det hvordan dataene har blitt innhentet, om utvalg/rekruttering, og hvilke begrunnelser som ble tatt i det arbeidet, selv om jeg ikke tok del i det. Imidlertid har jeg vektlagt å omtale og diskutere de ulike måleinstrumentene med fokus på validitet og reliabilitet. Her blir også operasjonalisering og begrepsvaliditet gjort rede for. Videre blir validitet og generaliseringsspørsmålet satt i fokus, ved å fremheve ulike svakheter i denne oppgaven og hvordan det blir forsøkt å håndtere disse i videre analyser og drøftinger. Dermed presenteres reliabilitet og indre konsistens, her omtales blant annet tilfeldige målingsfeil, ekstreme punkter (outliers), manglende verdier (missing values) og reliabilitetsanalyse. Avslutningsvis reflekteres det rundt forskningsetiske spørsmål.

### 3.1 Presentasjon av undersøkelsen

Undersøkelsens data er innsamlet fra et større forskningsprosjekt i regi av Barne-, ungdoms-, og familiedirektoratet, og Senter for sjeldne Diagnoser, «*Livssituasjonen for personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i Norge*» bestående av forskergruppen Feragen, Heggeli og Wæhre (2019). Prosjektet til Feragen og kollegaer (2019), tok sikte på å danne en handlingsplan som skal lede et godt og oppdatert grunnlag for kunnskapsbasert politikk på interkjønnfeltet, ved å utføre en kvalitativ studie om levekår, livssituasjon, behov og utfordringer blant de med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. Dataene som ble innhentet både via intervju og spørreskjema var med formål om å identifisere utfordringer og tiltaksbehov. Imidlertid ble ikke spørreskjemaet som ble sendt ut benyttet i forskningsprosjektet til Barne-, ungdoms-, og familiedirektoratet. Dataene fra survey-undersøkelsen benyttes i denne studien.

Denne studien benytter kvantitativ metode for å utforske dataenes innhold. Dataene vil være i tallform, for så å analyseres ved hjelp av statistiske metoder i SPSS25. Dataene som presenteres inngår i et ikke-eksperimentelt design, ofte omtalt som deskriptiv studie (Kleven, 2002b, s. 265). I motsetning til ekte- og kvasi-eksperimentelle design vil ikke forskeren manipulere variablene eller kontrollere mulige påvirkningsfaktorer. Målet med deskriptive studier, er å undersøke fenomenets tilstand slik det er (Kleven, 2002b, s. 265). I tillegg til å beskrive fenomener,

forsøkes det å undersøke funnene ved å studere mulige påvirkningsfaktorer som kan ha bidratt til at fenomenets tilstand har blitt slik det er (Kleven, 2002b, s. 265). I denne oppgaven benyttes beskrivende slutninger som sier noe om hvorvidt én eller flere variabler henger sammen. Spørreskjemaets formål er å belyse livssituasjonen til barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i Norge.

### **3.2 Deltakere og rekruttering**

Deltakerne i studien består av 27 foresatte av barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. Det er foresatte som svarer på spørreskjema på vegne av sine barn. Foresatte som deltok i studien var barnets primære omsorgsgivere, og kunne være barnets foreldre, besteforeldre eller fosterforeldre, men av hensyn til personvern blir de kun omtalt som foresatte eller foreldre i denne oppgaven. Kjønnnet på barna er 9 gutter og 18 jenter. Alderen er fra 1 år til 17 år. På grunn av personvernhensyn er det ikke kjent hvor mange deltakere som inngår i hver tilstand, siden det kun var mulig å undersøke dette ved å lese pasientjournal. Det finnes ingen helhetlig oversikt over hvor mange barn som har variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i Norge, kun et anslag over hvor mange som blir født hvert år, dette fordi noen får diagnosen sent, og andre blir diagnostisert ved fødsel.

Informanter ble rekruttert via en invitasjon med brevpost som inneholdt informasjon om prosjektet og forespørsel om samtykke til deltakelse. I tillegg ble det lagt ut informasjon om prosjektet på nettsidene til Senter for sjeldne diagnoser, Frambu kompetansesenter, Barne-, ungdoms- og familiedirektoratet og de involverte brukerforeningens nettsider og grupper i sosiale medier. Invitasjonen til å delta ble sendt til personer med en variasjon i kroppslig kjønnsutvikling som er registrert ved enten Oslo Universitetssykehus eller Haukeland Universitetssykehus som er de to regionale behandlingsstedene til studiens tilstander. Det ble rekruttert personer med medfødt binyrebarksvikt (CAH), androgent insensivitetssyndrom (AIS) og hypospadi gjennom Senter for sjeldne diagnoser, og personer med Turners syndrom og Klinefelters syndrom rekruttert fra Frambu kompetansesenter.

Ønsket om å delta i studien var variert, og det var derfor vanskelig å rekruttere like mange informanter i hver diagnose-gruppe. Det var et flertall av personer med Turners syndrom og Klinefelters syndrom som ønsket å delta i studien, derfor ble det gjennomført en utvelgelsesprosess for å forsøke å få et mest mulig representativt utvalg med i studien.



Informanter ble valgt ut slik at det var størst mulig variasjon i alder og bosted, samt for å sørge for at noen tilstander ikke var overrepresentert i studien. Informantene kommer fra 11 ulike fylker og alle helseregioner (før regionreformen 2020).

### **3.3 Survey som metode for datainnsamling**

Dataene som benyttes i denne studien er som nevnt innhentet ved bruk av spørreskjema eller ofte omtalt som en «survey» undersøkelse. En slik undersøkelse er ofte passende for forskningsspørsmål om selvrapportert holdninger, verdier, tro eller atferd (Neuman, 2006, s. 276). Fordelen med en slik innretning er at forskeren kan undersøke flere elementer i en og samme undersøkelse, og dermed måle flere variabler og teste ulike hypoteser med de samme dataene (Nauman, 2006, s. 284). Spørsmålene i survey-undersøkelser omhandler ofte erfaring om tidligere oppførsel/atferd, erfaringer og egenskaper.

Survey-undersøkelser kan ta for seg sensitive problemer eller spørsmål som respondentene kan oppleve som sensitive, for eksempel spørsmål som omhandler seksuell atferd eller psykiske helseproblemer og avvikende atferd (Friborg, 2006, s. 46). En utfordring med surveystudier som utforsker sårbare eller sensitive temaer er at respondentene kan være motvillige til å svare på spørsmål eller være tilbøyelig til å svare ufullstendig eller ikke helt sannferdig. Resultatene kan da bli misvisende hvis respondentene underrapporterer atferd og holdninger som de ønsker å skjule eller meninger som de oppfatter å være i strid med sosiale normer. Alternativt kan de overrapportere positiv atferd eller det de anser som allment akseptert tro. Dette omtales som «Social desirability bias» (Neuman, 2006, s. 285), eller sosial ønskelighet (Friborg, 2006, s. 46).

Studier viser at undersøkelsesformater som tillater større anonymitet hos respondentene, øker sannsynligheten for ærlige svar, framfor undersøkelser som involverer samhandling med andre personer (Holbrook, Green og Krosnick, 2003; Schaeffer og Presser, 2003). Spørreskjemaene i denne studien ble sendt per post, og informantene kunne selv avgjøre om de ville fylle de ut hjemme eller på Senter for sjeldne diagnoser (Oslo Universitetssykehus).

### 3.4 Måleinstrumenter

Måleinstrumentene som benyttes i denne oppgaven er standardiserte tester for å måle livskvalitet hos barn (PedsQL) og foreldre (WHOQOL-BREF), i tillegg til en måling av barnets psykologiske tilpasning (SDQ). De tre måleinstrumentene utgjør et komplett spørreskjema med inkludert bakgrunnsinformasjon. Ettersom skjemaene er en del av registeret til Senter for sjeldne diagnoser kan de ikke legges til som vedlegg i denne studien. Imidlertid kan Senter for sjeldne diagnoser kontaktes vedrørende spørsmål om skjemaer brukt i dette datamaterialet.

#### 3.4.1 Operasjonalisering og begrepsvaliditet

Abstrakte begreper som personlighet, temperament, intelligens, resiliens, håp, livskvalitet eller optimisme kan ikke observeres direkte. Selve kjernen i målingsproblemene i fag som pedagogikk og psykologi er at det benyttes indikatorer for å måle abstrakte begreper (Kleven, 2002a, s. 142). Begrepsvaliditet handler om i hvilken grad det som måles av et verktøy tilsvarende det teoretiske begrepet som studeres, eller om det er et samsvar mellom begrepet, slik det er definert i teori, og den måling vi bruker (Kruse, Schneeberg og Brussoni, 2014). For eksempel er begrepet livskvalitet avgjørende i denne studien. Vi operasjonaliserer fenomenet livskvalitet ved å benytte flere ulike ledd (påstander/spørsmål), der hvert enkelt ledd i undersøkelsen er ment å representere et aspekt ved fenomenet. Spørsmålene er utviklet i utgangspunkt i en teoretisk definisjon og forståelse av fenomenet. Jo flere aspekter ved begrepet vi klarer å dekke gjennom spørsmålene, jo bedre begrepsvaliditet kan målingen sies å ha. Slik bidrar operasjonalisering til å gjøre begrepene målbare. Når vi måler et begrep med en slik tilnærming, med flere spørsmål og påstander, kan vi beregne reliabilitet i form av indre konsistens (Kleven, 2002a, s. 158).

For å undersøke hvor gode de utvalgte indikatorene er til å måle det de skal bli ofte faktoranalyse valgt som analyseteknikk. En faktoranalyse benyttes for å forstå korrelasjonsstrukturen i et sett variabler, og på den måten si om det er et forhold mellom de ulike variablene (Friborg, 2010, s. 45). *Eksplorerende faktoranalyse* er en utforskende metode som ønsker å finne en faktormodell som kan reprodusere testskårens kovarians som regel som en del av en testutviklingsfase for å avklare hvilke ledd som kan forstås som felles faktorer (Friborg, 2010, s. 46). Ettersom et av kravene for å utføre en faktoranalyse er normalfordelte data og forholdsvis stort utvalg  $> 200$ , velger jeg heller å vise til tidligere forskning som undersøker validiteten til de ulike måleinstrumentene i spørreskjemaet herunder.

### 3.4.2 Pediatric Quality of Life Inventory - PedsQL

Livskvalitetsmålet PedsQL – ble utviklet for måling av helse-relatert livskvalitet hos barn og ungdom. Instrumentet er en egenrapportering, enten utfylt av barnet selv eller fullmektig (Varni, Seid og Kurtin, 2001). Det er utviklet fem versjoner av PedsQL som er tilpasset alder og informant; barneverjonen, 5-7 år, tenåringsversjonen 8-12 år, ungdomsversjonen 13-18 år og ungvoksenversjonen fra 18-25 år. I tillegg til foreldrerapporteringsversjonen som går fra 2-18 år (Reinfjell og Jozefiak, 2012). Det er foreldrerapporteringsversjonen som blir benyttet i denne studien. Dette ekskluderer deltakere med barn fra 0-2 år i videre analyser av PedsQL.

PedsQL er laget med formål om å måle kjernedimensjonene til livstilfredshet som avgrenset av Verdens helseorganisasjon (WHO) (Varni, et al., 2001). Testen består av 4 delskalaer, herunder «fysisk fungering» med 8 spørsmål, «følelsesmessig fungering» med 5 spørsmål, «sosial fungering» med 5 spørsmål og «skolemessig fungering» med 5 spørsmål. Svarene avgis på en 5-punkt likert skala, hvor spørsmålene graderes fra: det er aldri et problem (0) til - det er nesten alltid ett problem (4).

Skårene transformeres fra 0-4 til en skala på 0-100 for å lettere tolke resultatene (Reinfjell og Jozefiak, 2012). Det beregnes en sumskår for hver delskala der 0 er lavest verdi og 100 er høyest verdi, på de enkelte delskalaene (Varni, Burwinkle, Seid & Skarr, 2003). I tillegg beregnes det en sumskåre for psykososial fungering, som inkluderer 15 delspørsmål som omfatter delskalaene følelsesmessig, sosial og skolemessig fungering som også skåres fra 0 til 100 (Reinfjell og Jozefiak, 2012). På grunnlag av alle 23 spørsmålene kan en beregne en total livskvalitetsskåre, der 0 er absolutt minste verdi og 100 representerer optimal livskvalitet. Skalert skåre beregnes av gjennomsnittet: summen av alle ledd (spørsmål/påstander) over antall besvarte elementer, som også tar hensyn til manglende data. Dersom mer enn 50% av elementene i en skala mangler, skal skalaen ikke beregnes (Reinfjell og Jozefiak, 2012).

PedsQL er et instrument som kan brukes på tvers av ulike barnepopulasjoner, inkludert sunne barn og barn med akutte og/eller kroniske helsemessige forhold (Varni, et al., 2003). Til tross for at det eksisterer en rekke pediatriske instrumenter som kunne benyttes, blir PedsQL ofte foretrukket fordi kartleggingen er kortfattet, mindre tidskrevende og antall aldre undersøkelsen omfatter. Måleinstrumentet har veldokumentert validitet og reliabilitet, og er sensitiv til å fange

opp endringer i helserelatert livskvalitet over tid hos både friske barn og barn med akutte og kroniske helsetilstander i et mindre utvalg (Varni et.al., 2003).

Varni og kollegaer (2003) undersøkte begrepsvaliditet i PedsQL ved å bruke «the known-groups method». Metoden sammenligner skala poeng på tvers av grupper. Utvalget ble valgt ut i forhold til det aspektet av helse som de ønsket å undersøke. De konkluderer med at PedsQL er et valid måleinstrument på livskvalitet (Varni et al., 2003). En norsk studie gjort av Reinfjell, Diseth, Veenstra og Vikan (2006) konkluderte med at PedsQL er en valid generisk helserelatert måling av livskvalitet som kan anbefales for selvrapporing og foreldrerapporing. De utførte en tversnittstudie der reliabilitet i form av indre konsistens ble vurdert med Cronbach's alfa. Videre ble begrepsvaliditet vurdert med en utforskende faktoranalyse, og ved å undersøke inter-item-korrelasjonene mellom de fire PedsQL-delskalaene for ungdommer og deres foreldre. Faktoranalysen viste resultater som samsvarte med den engelske versjonen av PedsQL, med unntak av skalaen «fysisk fungering» (Reinfjell et al., 2006).

Det foreligger ikke norsk normmateriale for å tolke resultater av den norske foreldrerapporingersversjonen av PedsQL (Reinfjell et al., 2012). En studie utført av Reinfjell og kollegaer (2006) viser data på ungdommer i aldersspennet 13-15 år. Studien inkluderer både selvrapport og foreldrerapport. I tabell 1. illustreres gjennomsnittskårene på foreldrerapportert og selvrapportert helserelatert livskvalitet hos ungdommer i en normal populasjon i studien til Reinfjell et al., (2006). Gjennomsnittet som er presentert i tabellen benyttes som målestokk for å gi mening til skårene i denne studien. Likevel er det verdt å bemerke at resultatene er spesifikt rettet mot ungdomsgruppen, og benyttes derfor med forsiktighet fordi resultatene ikke nødvendigvis er representativ for å sammenligne med de yngre barna i denne studien.. Resultatene fra studien til Reinfjell og kollegaer (2006) belyser også at det er forholdsvis små forskjeller mellom selvrapport og foreldrerapport. Med unntak av gjennomsnittskåren på fungering i skole og sosial fungering som er noe lavere i selvrapport enn i foreldrerapport. Imidlertid konkluderer Reinfjell og kollegaer (2006) at PedsQL fint kan benyttes for å undersøke skolelivskvalitet både som selv-rapport og foreldre-rapport. Resultatene i studien til Reinfjell et al. (2006) benyttes i denne studien som en indikator på skåre i en sunn populasjon så vi har en målestokk for sammenligning (se tabell 1.)

Tabell 1. Gjennomsnitt (standardavvik) for ungdommer 13-15 år i Sør-Trøndelag (Reinfjell et al, 2006)

	Selvrapport	Foreldrerapport
N	452	237
Total skår	85,3 (11,1)	86,1 (10,2)
Fysisk fungering	91,1 (10,5)	88,8 (11,8)
Psykososial helse	82,1 (12,5)	84,7 (10,9)
Følelsesmessig fungering	77,2 (17,3)	80,0 (14,1)
Sosial fungering	78,0 (15,5)	89,0 (12,4)
Fungering i skole	78,0 (15,5)	88,97 (12,4)

### 3.4.3 Strength and Difficulties Questionnaire (SDQ)

Strength and Difficulties Questionnaire (SDQ) er et standardisert instrument for å måle psykologisk tilpasning blant barn og unge ved å måle både følelsesmessige og atferdsmessige symptomer, samt symptomenes innvirkning på dagliglivet utviklet av Goodman. Måleinstrumentet er rettet mot selvrapportering, foreldrerapportering eller lærerrapportering. Måleinstrumentet er tilsvarende for alle rapporteringene, som vil si at skalaene er like og de skåres likt uavhengig av hvem som fyller ut skjemaet (Van Roy, Groholt, Heyerdahl & Clench-Aas, 2010). I denne studien er foreldre som har skåret på vegne av sine barn.

Spørreskjemaet består av 25 spørsmål, fordelt på fem subskalaer. Hver skala har fem ledd som dekker områdene emosjonelle vansker, oppførsel, hyperaktivitet, sosiale vansker og prososial atferd. Svorskalaen skåres på en tre-punkt likert skala, stemmer ikke (0), stemmer delvis (1) og stemmer helt (2). Skåren går fra 0 til 40 og dannes ved å legge sammen skårene på subskalaene (0-10), bortsett fra prososial atferd skåren (Van Roy et al., 2010). Noen av påstandene er positivt formulert, mens andre er negativt formulert og reverseres før skåring (Van Roy et al., 2010). Ifølge Goodman og Goodman (2009) indikerer en «høy» SDQ-skåre en større frekvens av mentale forstyrrelser eller emosjonelle og atferdsmessige symptomer enn barn med «lav» SDQ-skåre.

Tolkning av resultatet fra SDQ er noe omdiskutert, hva som anses som normalt, risiko og unormalt (klinisk område) er variert på tvers av studier og populasjoner det forskes på. Nasjonale normdata for skåring mangler i Norge (Kornør og Heyerdahl, 2017). Imidlertid beskriver Van Roy og kollegaer (2010) i sin studie (Helseprofil Akershus) en total skår mellom 0-10 som normal, en skåre mellom 11-13 som i grenseområdet og anses som lett forhøyet, og

14-40 som antatt klinisk område. Verdiene gitt i studien Van Roy og kollegaer (2010) ligger til grunn for tolkning eventuelle tolkninger av resultatene i denne studien.

Tre norske studier (Holen et al., 2012; Sanne et al., 2009; Van Roy et al., 2008) undersøkte faktorstruktur i foreldreversjonen av SDQ ved hjelp av konfirmatoriske faktoranalyser. Studiene konkluderer med at Goodman's femfaktormodell hadde akseptabel eller god modelltilpasning. Funnene viser at de fem skala-dimensjonene, men hevder at enkelte ledd og subskalaer ikke er optimale. Sanne og kollegaer (2009) påpeker at tolkning av resultater derfor ikke bør vektlegge enkeltspørsmål eller enkelte subskalaer, men heller totalen. Flere studier har inkludert «multi-trait multi-method» i modellering av dataene (Van Roy, Veenstra og Clench-Aas, 2008; McCrory og Layte, 2012). Modelltilpasning ble forbedret da en positiv konstruksjonsfaktor ble lagt til i modellen (Van Roy et al., 2008; McCrory et al., 2012). Funnene viser at SDQ er nyttig som screening-verktøy eller som del av en klinisk vurdering (Goodman et al., 2000; Van Roy et al., 2008). Garralda, Yates og Higgison (2000) poengterer at det også er et godt verktøy for å måle behandlingsresultat.

Studien til van der Meer, Dixon og Rose (2008) viser en lav til moderat korrelasjon mellom foreldrerapport og selvrappport på SDQ. Funnene støttes i studien til Van Roy et al., (2010), der barnet selv rapporterte flere symptomer. Imidlertid rapporterte barna også mindre innvirkning av deres opplevde vansker enn foreldrene. Funnene i studien til Van Roy et al., (2010) viser at foreldrene var mer konsekvente i sin evaluering av symptomer og symptomenes påvirkning enn barna. Noe som kan indikere at foreldrene kan se situasjonen til barnet i et større perspektiv enn det barnet selv klarer. Lite samsvar mellom foreldrenes og barnets rapportering gjenspeiler derfor ikke nødvendigvis invalide svar, men kan være påvirket av faktorer i individ og miljø (Van Roy et al., 2010; Treutler og Epkins, 2003).

#### **3.4.4 World Health Organization Quality of Life- BREF (WHOQOL-BREF)**

Verdens helseorganisasjon (WHO) utviklet WHOQOL-BREF som et instrument for å vurdere livskvalitet, både i forbindelse med forskning, kliniske evalueringer eller andre sammenhenger der målet er å undersøke livskvalitet (WHOQOL Group, 1994; Hsiao, Wu og Yao, 2014). Måleinstrumentet inneholder mål på det generelle aspektet for livskvalitet og helse, og deles inn i fire subskalaer (domener): fysisk helse, psykisk helse, sosiale relasjoner og miljø. Skjemaet inneholder 26 spørsmål fordelt på de fire ovennevnte domener som er ment til å belyse

livskvalitet. I denne studien anvendes WHOQOL-BREF for å undersøke livskvaliteten hos foreldrene til barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling.

Domeneskårene skaleres i positiv retning som vil si at høyere skåre betyr høyere livskvalitet. Deltakerne uttrykker hvor mye de har opplevd ulike påstandene/leddene i løpet av de siste to ukene på en 5-punkts Likert-skala rangert fra 1 (ikke i det hele tatt/svært dårlig o.l.) til 5 (fullstendig/svært tilfreds, o.l.). Råskåren i hver subskala er summen av skåren på de ulike leddene. Den gjennomsnittlige poengsummen for leddene innenfor hvert domene brukes for å beregne en total domeneskåre. Videre blir gjennomsnittskåren multiplisert med 4 for å gjøre domeneskårene sammenlignbare med poengsummene som blir brukt i originalversjonen, WHOQOL-100. Der mer enn 20% av leddene mangler i et domene, uteblir totalskåren (WHO, 1996).

Studier har vist at de fire domeneskårene for WHOQOL-BREF er moderat til sterkt korrelert (Hsiao, et al., 2014; Skevington, Lofty & O'Connell, 2004; Yao, 2005). Undersøkelser av faktorgyldighet, har vist at WHOQOL-BREF versjonen har en hierarkisk faktorstruktur med fire førsteordensfaktorer og en andreordens faktor. I en slik struktur kan de fire domenene betraktes som indikatorer for en generell livskvalitet-faktor. I andreordens faktor varierte faktorladningene for hvert domene fra 0,83 til 1,00 (Skevington, et.al., 2004; Yao, 2005). Slike høye andreordens faktorladninger antyder at det kan være unødvendig å differensiere de fire domenene i WHOQOL-BREF. I begge studiene (Skevington et.al., 2004; Yao, 2005) ble det utført faktoranalyser (CFA) der resultatene indikerer at den delte variansen blant de fire domenefaktorene resulterer i korrelasjoner på henholdsvis 0,70-0,83 og 0,77-0,91. Basert på disse funnene ser det ut til at de fire domenene belyser det samme fenomenet, derfor kan vi anta at WHOQOL-BREF er et velegnet og gyldig estimat for subjektiv livskvalitet hos foreldrene i denne studien.

### 3.5 Validitet og generaliseringsspørsmålet

Validitet knyttet til de ulike måleinstrumentene har blitt noe presentert i de foregående kapitlene, og vil ikke inkluderes her. Videre kan validiteten i oppgaven vurderes i form av indre validitet og ytre validitet.

*Indre validitet* handler om hvorvidt og i hvilken grad vi kan si at det eksisterer årsakssammenheng eller kausalitet mellom to variabler (Ringdal, 2013; Kleven, 2002b, s. 266). I en deskriptiv studie vil en statistisk sammenheng alltid være forenlig med flere mulige kausale relasjoner. I denne studien er det flere elementer eller ukjente variabler som kan påvirke resultatet, ofte omtalt som 'tredjevariabel' (Kleven, 2002b, s. 268). For å kunne trekke slutninger og påstå at årsakssammenhengen mellom to variabler skal være korrekt må ukjente variabler kontrolleres. Imidlertid er dette en svakhet i deskriptive studier, da slike variabler ikke har blitt kontrollert for. Dette vil si at denne studien ikke vil kunne si noe om årsaken til at fenomenet er som det er, som følge av dette kan vi heller ikke trekke sikre konklusjoner.

En reell utfordring i denne studien er validitet i form av *statistisk styrke* («Statistical Power»). Statistisk validitet handler om man har avdekket en signifikant effekt (Lund, 2002, s. 113). Det kan en finne ut av ved å undersøke om man har funnet en effekt, størrelsen på effekten og om den er signifikant. Altså at den observerte forskjellen er systematisk og ikke grunnet tilfeldigheter, samt at den er av en viss størrelse. En reell trussel mot den statistiske validiteten i denne studien er blant annet lav statistisk styrke som følge av et lite utvalg (Lund, 2002, s. 115). Et utvalg bestående av 27 personer har betydning for hvilke analyser som er mulig å gjennomføre og hvor pålitelig resultatet er. Field (2016) poengterer at å oppnå statistisk styrke i studier med smått utvalg er utfordrende, særlig på grunn av ekstreme punkter og at dataene i mindre studier sjelden er normalfordelt. For å forbedre statistisk styrke vil ikke-parametriske statistikk benyttes. Ikke-parametriske metoder benytter ordningsrekkefølgen til observasjonene og rangerer dem fra lavest til høyest verdi (Skovlund, 2017). Av den årsak er ikke slike analyser like følsom for ekstreme verdier eller manglende verdier ettersom de bygger på ranger og frekvenser (Norusis, 2011).

*Ytre validitet* refererer til i hvilken grad vi kan generalisere resultater i en utvalgsstudie til den respektive populasjonen (Johannessen, Tuft & Kristoffersen, 2010, s. 356). Det vil si om resultatene som ble oppnådd i studien vil gjelde for alle personer med lik tilstand, i lignende situasjoner som er studert på et annet tidspunkt. Utvalgsprosedyrer er avgjørende for å vurdere



om vi kan generalisere til den respektive populasjonen. Denne studien er preget av en skjønsmessig utvelging (Lund, 2002, s. 134), i tillegg til at det var frivillig å delta. Hvilket vil svekke mulighetene for å generalisere. Flere personer som fikk informasjon om studien og invitasjon til å delta, valgte å ikke delta. Derfor vet vi lite om hvor representative resultatene i denne studien er, sammenlignet med de som ikke valgte å delta. Dette er en faktor som tilsier at vi må være forsiktig med å anta at utvalget er representativt for gruppen med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i Norge.

### **3.6 Reliabilitet**

*Reliabilitet* gir uttrykk for stabilitet og konsistens i resultatene av en undersøkelse. Det vil si hvor nøyaktig eller konsistent en test måler det den skal måle eller i hvilken grad data er fri for tilfeldige målingsfeil (Kleven, 2002a, s. 154). Når vi diskuterer reliabilitet omtales det ofte i form av indre konsistens. Målinger blir omtalt som konsistente dersom resultatet fra vitenskapelige studier kan reproduseres. Dette vil si at samme person vil få tilnærmet likt resultat ved å måle på nytt ved et senere tidspunkt, forutsatt at personen ikke har forandret seg (Kleven, 2002a, s. 154). I denne studien ble det utsendt tre spørreskjemaer (survey) uten noen form for intervensjon eller behandling. I et slikt studiedesign hvor måleprosedyren kun er utført en gang undersøker vi påliteligheten til måleprosedyren med fokus på dens indre konsistens. Dersom det skal være mulig å estimere reliabilitet må det foreligge minst to målinger på fenomenet, dette er fordi flere målinger på det samme fenomenet vil jevne ut tilfeldige målefeil (Kleven, 2002a, s. 158). I denne studien har hvert domene i hvert måleinstrumentene flere ledd som belyser det samme fenomenet, hvilket gjør det mulig å beregne indre konsistens.

#### **3.6.1 Estimering av reliabilitet med Cronbach's Alfa reliabilitetsanalyse**

En velegnet måling av indre konsistens reliabilitet er Cronbach's Coefficient Alpha. Cronbach's  $\alpha$  er et statistisk mål på indre konsistens, og er basert på korrelasjonen mellom de ulike leddene som inngår i domenene. Dette vil fortelle oss hvor tett forbundet variablene er som en gruppe. Måling av et felles begrep bør derfor resultere i en tydelig korrelasjon mellom de leddene som inngår i hvert domene (Clausen og Johansen, 2017, s. 270). Sterkere korrelasjon mellom de enkelte leddene, og flere ledd i indeksen vil resultere i høyere Coefficient Cronbach's  $\alpha$ , hvilket indikerer at økt antall påstander resulterer i at tilfeldige målingsfeil jevnes ut (Kleven, 2002a, s. 166). Dersom leddene måler de ulike sidene ved det samme latente begrepet, så vil man si at målingen av begrepet har høy indre konsistens, som er en forutsetning

for troverdig operasjonalisering av de teoretisk latente begrepene (Clausen og Johansen, 2017, s. 271). Cronbach's  $\alpha$  varierer mellom 0,00 og 1,00. I litteraturen blir  $\alpha$ -verdier 0,70 og høyere ofte regnet som tilfredsstillende. En slik  $\alpha$ -verdi tilsier at 70 % av variansen er sann varians, mens de resterende 30 % er feilvarians og representerer noe annet enn det som er felles for variablene som inngår i indeksen (Clausen og Johansens, 2017, s. 271; Lie, 2010, s. 124). I kapittel 4 presenteres resultatene fra Cronbach's alfa analysene.

### 3.6.2 Tilfeldige målingsfeil, manglende data og ekstrem punkter

Tilfeldige målingsfeil er feil i datasettet som oppfører seg tilfeldig, og jevner seg ut dersom målingen gjentas mange ganger (Kleven, 2002a, s. 153). Når vi forsøker å operasjonalisere fenomenet livskvalitet, må vi anta at resultatet forstyrres av enten tilfeldige eller systematiske målingsfeil, som kan være en trussel mot begrepsvaliditeten. Kleven, (2002a, s. 153) presenterer følgende ligning: «*Observert skåre = valid skåre + systematiske feil + tilfeldige feil*». Likningen uttrykker at det observerte resultatet fra en person i datasettet er en funksjon av valid skåre (sann skåre/konsistent), systematiske feil (feil som påvirker resultatet konsistent) og tilfeldige feil (feil grunnet tilfeldigheter). Ved å undersøke datasettet er det ingen tegn til at enkelte spørsmål bærer preg av manglende data (systematisk feil), tilsynelatende ser de manglende verdiene ut til å være tilfeldige. For å undersøke systematikken i manglende data ble 'Little's MCAR test' i SPSS25 benyttet. Resultatene fra analysen viste at de manglende verdien er tilnærmet tilfeldig, med et signifikansnivå høyere enn  $p$  (0,05). (Sig = 0,48, PedsQL. Sig= 0,47, SDQ, Sig = 0,42, WHOQOL-BREF).

Det kan reflekteres rundt hva som er årsaken til manglende verdier, for eksempel at deltakeren ikke har forstått spørsmålet, oversett et spørsmål, ikke villet avgi et svar eller vært usikker på hva en skal svare. Det er en informant som ikke har svart på PedsQL eller SDQ, dette fordi barnet ikke er i de inkluderte aldersgruppene for disse måleinstrumentene. Fysisk fungering i PedsQL er domenet med flest manglende verdier, her er det 4 manglende verdier utenom den ene deltakeren som ikke deltok på spørreskjemaet. SDQ har totalt 3 manglende verdier på ulike påstander. Måleinstrumentet som er mest preget av manglende verdier er WHOQOL, med totalt 19 manglende verdier. Særlig spørsmål 21 vedrørende seksuelliv er preget av manglende data (3 missing/ 11%), det kan være at de intensjonelt har valgt å ikke svare på dette fordi det kan være ubehagelig eller ikke ønskelig å dele slik personlig informasjon. Imidlertid vil skårene i

WHOQOL-BREF bli tolket og analysert med forsiktighet, ettersom det er såpass mange manglende svar i denne delen av kartleggingen.

Følgende etter å ha identifisert manglende data, besluttet jeg å ikke fjerne personer fra datasettet selv om de hadde en eller flere manglende verdier slik standardalternativet i SPSS tilsier («Listwise deletion»). Da hadde dette resultert i å fjerne flere av deltakerne i studien, ettersom de manglende verdiene er spredt på ulike deltakere. I analysen velges derfor parvis sletting («pairwise deletion») der det er mulig. Dette gjøres for å forsøke å minimere tapet av data, samt tap av statistisk styrke som kan oppstå ved listvis sletting. Hensikten ved å benytte parvis sletting er å maksimere all tilgjengelig data ved en analyse, der alle besvarte ledd blir inkludert i analyse. Det er verdt å nevne at antall missing derfor vil variere fra variabel til variabel, som resulterer i at antall deltakere som inngår i beregning av ulike analyser også vil variere. Listvis sletting kan være hensiktsmessig strategi i forhold til skjevhet i estimatene, men kan resultere i mindre statistisk styrke og derfor gjøre det vanskeligere å forkaste null hypotesen (Cumming og Calin-Jageman, 2017). Begge metodene kan være problematiske, men pairwise deletion kan forsvarlig benyttes i en deskriptiv studie som denne, og er hensiktsmessig i forhold til det begrensede utvalget (Graham, 2009, s. 554).

Ekstreme verdier, ofte kaldt uteliggere (outliers), som skiller seg mye fra resten av datasettet kan ødelegge for analyser som blir utført, spesielt gjennomsnittet er svært følsom for uteliggere. Denne studien er spesielt utsatt for slike påvirkninger ettersom utvalget er smått. Derfor ble eventuelle ekstreme verdier identifisert (se vedlegg for Box-Plot) og spørsmålet om å enten fjerne eller inkludere uteliggere vil avgjøres av hvor mye de påvirker resultatet i en analyse (Eikemo og Clausen, 2012, s. 173). Noen analyser håndterer uteliggere bedre enn andre, og noen uteliggere vil ikke nødvendigvis påvirke resultatet betydelig. I denne studien ble en uteligger identifisert som sterkt påvirkende i en av analysene, og derfor filtrert bort. Dette omtales nærmere i kapittel 4.

### 3.7 Forskningsetikk

Forskningsetikk dreier seg om visjonen om den gode forskningen, og begrepet viser til et sett av verdier og normer som skal bidra til å konstituere og regulere vitenskapelig virksomhet (De nasjonale forskningsetiske komiteene, 2015). Det er Forskningsetikkloven som gir retningslinjer for hvordan en skal sikre etiske vurderinger og redelighet i forhold til metode, datainnsamling og presentasjon. Forskningsetikk angår god skikk og relasjonen forskere imellom, i tillegg angår det også forholdet mellom forskere, andre mennesker og samfunnet. De forskningsetiske retningslinjene er et hjelpemiddel for forskeren og forskersamfunnet, som skal gi retningslinjer angående hvordan man skal sikre etiske vurderinger om redelighet i forhold til metode, datainnsamling og presentasjon (Ringdal, 2013).

Prosjektet ble sendt til Regional komité for medisinsk og helsefaglig forskningsetikk (REK sør-øst) 05-12/17. Vedtak med godkjenning til studien ble mottatt den 24/4-2018. Alle informantene mottok skriftlig informasjon om studien i mai 2018. Informantene fikk informasjon om at det var frivillig å delta og at de under hvilket som helst tidspunkt stod fri til å trekke seg fra studien. De ble informert om hvordan datamaterialet ville bli oppbevart, analysert og anonymisert. Datamaterialet ble oppbevart i tråd med krav fra Personvernombudet ved Oslo Universitetssykehus. I tillegg underskrev jeg en taushetserklæring i forbindelse med arbeidet med denne oppgaven.

I forhold til det som presenteres i denne studien, vil krav om kildehenvisning følge retningslinjene for American Psychological Association (APA). Henvisninger, samt sidetall er inkludert i løpende tekst og i alfabetisk rekkefølge i litteraturlisten. Sidetall inkluderes dersom det refereres til en spesifikk side, og ekskluderes dersom det refereres til flere sider i en henvisning eller verket i sin helhet.

Refleksjoner omkring hvordan resultatene kan fremstilles på en slik måte at de representerer de faktiske vurderingene hos foreldrene har vært sentralt i forhold til å sikre forskningsetisk redelighet. Dette har vært noe utfordrende ettersom resultat av analyse viser at det er stor spredning i foreldrenes vurderinger. Valg av hensiktsmessig analytiske redskaper har vært noe som måtte vurderes i forhold til å fremstille resultatene på en etisk forsvarlig måte.

Det har vært viktig å ta hensyn til etiske betraktninger i forhold til gruppen det studeres på. Særlig fordi det er sjeldne tilstander det forskes på, hvor populasjonen er liten. Resultatene i

studien presenteres derfor i en slik form at de ikke kan direkte knyttes til respondenter. Sensitiv informasjon som for eksempel hjemkommune og lignende ekskluderes. Videre har valg av begreper og hvordan tilstandene omtales i studien vært gjort med forsiktighet.

### **3.8 Statistiske analyser**

Alle statistiske analyser av datamaterialet ble gjennomført ved bruk av statistikk programmet SPSS 25 fra IBM. Som nevnt har de ulike måleinstrumentene som benyttes i denne testen godt dokumentert validitet og reliabilitet, hvilket vil si at de er godt egnet til denne studien hvor formålet er å et fenomen slik det er uten å manipulere variabler. For beregning av skårer foreligger det test-spesifikke retningslinjer og algoritmer (SPSS-syntaks fil), som sikrer korrekt skåring i forhold til måleinstrumentenes retningslinjer.

De ulike statistiske analysene i denne studien omfatter deskriptiv analyse, reliabilitetsanalyse, normalitetsanalyse, samt ikke-parametriske analyser i form av Mann Whitney U test, Kruskal Wallis og Korrelasjonsanalyse Spearmans *rho* fordi dataene ikke er normalt fordelt. Dette kommer vi nærmere inn på i kapittel 4. De ulike analysemetodene blir redegjort for der de benyttes.

## 4 Analyse og resultater

På bakgrunn av datamaterialets omfang, velger jeg å ta noen beslutninger når det kommer til utvalg og presentering av resultater og funn. En slik avgrensning var nødvendig da ikke all dataen som har blitt innhentet er av like stor relevans innenfor det spesialpedagogiske perspektivet. Kapitlet belyser valg av analyser, reliabilitetsanalyse, deskriptiv statistikk samt analyser rettet mot forskningsspørsmålene nevnt i kapittel 2.5.

### 4.1 Innledende analyser

Før eventuelle analyser relatert til forskningsspørsmål og hypoteser utføres, ble det utført såkalt «innledende analyser» for å undersøke om dataene er reliable og hvilke statistiske analyser som er egnet videre. De innledende analysene inkluderer normalitetstest, reliabilitetsanalyse, samt deskriptiv statistikk av bakgrunnsvariabler og summeskårer på de ulike måleinstrumentene.

#### 4.1.1 Normalitet og valg av analyser

Det er ulike forutsetninger for å gjennomføre statistiske analyser, ofte er det krav om at variablene er normalfordelt (Field, 2016; Cumming og Calin-Jageman, 2017). En normalitetstest vil vurdere i hvilken grad variablene følger en normal distribusjon og derfor legge grunnlag for hvilke statistiske analyser som er egnet for videre undersøkelser (Field, 2016, s. 413).

Tabeller 2 til 4. viser resultatene fra normalitetstestene Kolmogrov-Smirnov og Shapiro-Wilk for de ulike måleinstrumentene i studien. Normalitetstestene sammenligner spredningen i datasettet med spredningen i en normal distribusjon. Dersom testen er signifikant, altså at den har en  $p$ -verdi lavere enn 0,05, betyr det at spredningen i datasettet ikke følger en normal distribusjon (Field, 2016, s. 418). Dataene gjengitt i tabell 2 til 4. viser varierende verdier i normalitetsanalysen. Field (2016, s. 413) hevder at en K-S test i et mindre utvalg kan ha for lav statistisk styrke til å identifisere eventuelle skjevheter. Derfor ble de ulike variablene undersøkt med histogram, samt vurdering av skjevheter (Skewness/Kurtosis). Hvis dataenes distribusjon viser skjevheter (Skewness/Kurtosis) følger de ikke en normal distribusjon, spesielt ved små utvalg (Cumming og Calin-Jageman, 2017, s. 88).

Tabell 2. Normalitetstest PedsQL

	Kolmogorov-Smirnov <sup>a</sup>			Shapiro-Wilk		
	<i>Statistic</i>	<i>df</i>	<i>Sig.</i>	<i>Statistic</i>	<i>df</i>	<i>Sig.</i>
Følelsesmessig fungering	.27	25	.000	.87	25	.005
Sosial fungering	.21	25	.004	.90	25	.021
Fungering i barnehage/skole	.17	25	.064	.92	25	.068
Psykososial helse	.20	25	.020	.90	25	.018
Total skåre	.14	25	.181	.95	25	.255

a. Lillifors Significance Correction

Tabell 3. Normalitetstest SDQ

	Kolmogorov-Smirnov <sup>a</sup>			Shapiro-Wilk		
	<i>Statistic</i>	<i>df</i>	<i>Sig.</i>	<i>Statistic</i>	<i>df</i>	<i>Sig.</i>
Emosjonelle symptomer	.27	25	.000	.87	25	.005
Atferdsproblemer	.21	25	.004	.90	25	.021
Hyperaktivitet	.17	25	.064	.92	25	.068
Venneproblemer	.20	25	.020	.90	25	.018
Prososial atferd	.22	25	.003	.78	25	.000
Total skåre	.14	25	.181	.95	25	.255

a. Lillifors Significance Correction

Tabell 4. Normalitetstest WHOQOL-BREF

	Kolmogorov-Smirnov <sup>a</sup>			Shapiro-Wilk		
	<i>Statistic</i>	<i>df</i>	<i>Sig.</i>	<i>Statistic</i>	<i>df</i>	<i>Sig.</i>
Fysisk funksjon	.15	24	.170	.95	24	.244
Psykisk funksjon	.19	24	.020	.94	24	.154
Sosiale forhold	.30	24	.000	.81	24	.000
Miljø	.23	24	.000	.90	24	.019

a. Lillifors Significance Correction

Resultatene fra normalitetsanalysen indikerer at noen variabler ikke følger en normalfordistribusjon. Dette støttes ved å undersøke histogrammer for de ulike variablene (se vedlegg for histogram), i tillegg viste flere av variablene tegn til skjev distribusjon ved å undersøke skjevhet (Skewness og Kurtosis). Analyser av data som ikke følger normal fordeling krever bruk av ikke-parametriske analyser. Ikke-parametriske analyser benytter observerte verdier og bygger på ranger eller frekvenstabeller og er derfor ikke like følsom for ekstrempunkter eller manglende verdier (Ringdal, 2013 s. 269). De fleste forutsetninger om fordelinger er utfordrende i et begrenset utvalg, det er også i små utvalg at ekstreme verdier gir størst utslag (Field, 2016, s. 455). Derfor er ikke-parametriske analyser valgt i denne studien. Til tross for at dataene ikke følger en normal fordeling vil de bli presentert med ulike mål på spredning og sentral tendens. For å undersøke forskningsspørsmålene ble Kruskal-Wallis og Mann-Whitney U test benyttet for å undersøke ulikheter mellom grupper. Spearman's Correlation Coefficient ble brukt for korrelasjonsanalyser. Analysemetodene vil bli nærmere presentert der de benyttes.

#### **4.1.2 Cronbach's alfa – reliabilitetsanalyse**

Chronbach's alfa benyttes for å undersøke om det er en sammenheng mellom de ulike leddene som er inkludert i undersøkelsen. Analysen er ment til å gi en indikasjon på hvorvidt de leddene som er inkludert i måleinstrumentene måler de latente begrepene på en konsistent måte. Akseptabel alfa-verdi er som nevnt i kapittel 3.5 noe omdiskutert, der for høy alfa kan indikere at leddene som inngår i indeksen er for like, og like spørsmål vil generere like svar (Clausen og Johansen, 2012, s.271). Imidlertid er en  $\alpha$ -verdi omkring 0,7 ansett som tilfredsstillende i denne studien.

Resultatene fremstilt i tabell 5. viser at alle domenene i PedsQL og WHOQOL-BREF er innenfor hva som er ansett som akseptabel verdi. Dette indikerer at målingene kan anses å være reliable og vitne om god indre konsistens. Den gjennomsnittlige korrelasjonen mellom variablene i de ulike indeksene er variert. Imidlertid viser alfa koeffisienten til Strength and Difficulties Questionnaire noe utilfredsstillende resultater, særlig i indeksen 'venneproblemer' ( $\alpha=0.48$ ) og 'atferdsvansker' ( $\alpha=0.53$ ). Dette indikerer at det foreligger stor sannsynlighet for målefeil, og vi kan derfor ikke si med sikkerhet at dette måleinstrumentet, eller særlig de to indeksene, måler det de skal måle (Kleven, 2002a, s. 170).



Tabell 5. Cronbachs Alfa

<b>Område</b>	<b>Antall (n)</b>	<b>Items</b>	<b>Gjennomsnittlig korrelasjon</b>	<b>Cronbachs alfa</b>
<b>PedsQL – Pediatric Quality of Life</b>				
Fysisk fungering	26	8	0,56	0,91
Følelsesmessig fungering	26	5	0,37	0,74
Sosial fungering	26	5	0,60	0,87
Fungering i barnehagen/skolen	25	5	0,35	0,74
<b>SDQ – Strength and Difficulties Questionnaire</b>				
Emosjonelle symptomer	26	5	0,34	0,71
Atferdsproblemer	25	5	0,18	0,53
Hyperaktivitet	25	5	0,55	0,86
Venneproblemer	25	5	0,16	0,48
Prososial atferd	26	5	0,36	0,73
Totale vansker	26	5	0,33	0,71
<b>WHOQOL-BREF</b>	25	4	0,65	0,87

Det er flere norske studier som også viser tilfredsstillende  $\alpha$ -verdi i indeksen for venneproblemer og atferdsvansker (Helgeland et al., 2011; van Roy et al., 2008). Imidlertid konkluderte Theunissen et al., (2013) i deres studie av SDQ (foreldrerapport) at lav indre konsistens i delskalaer ikke rettferdiggjør bruk av delskalaene i klinisk arbeid og beslutninger vedrørende barns behov for videre oppfølging og iverksetting av tiltak. En studie av SDQ lærerrapport hadde samme funn på indre konsistens, der noen delskalaer ikke var tilfredsstillende (Mieloo et al., 2012). Både studien til Theunissen et al. (2013) og Mieloo et al. (2012) anbefaler at bruk av SDQ kun benyttes som et screeningverktøy for å få mer informasjon om barnets utfordringer, og ikke som del av klinisk arbeid. Ettersom SDQ ikke har tilfredsstillende mål på indre konsistens på to indekser vil resultatene ikke tolkes med klinisk øyemed og resultatene fra skårer vil ikke illegges mye mening. Likevel benyttes resultatene fra SDQ for å få mer informasjon vedrørende styrker og svakheter i forhold til livskvalitet og skolelivskvalitet.

#### **4.1.3 Presentasjon av bakgrunnsvariabler**

Spørreskjemaet innledes med ulike spørsmål for å innhente informasjon om deltaker og deltakerens bakgrunn, herunder fødselsår på barnet, hvilket fylke de bor i, hva relasjonen til barnet er, hvor barnet er på dagtid, høyeste utdanning hos foresatte, foresattes yrkesmessige status og sivilstatus, samt om de har ansvar for andre barn under 18 år og om deres morsmål er norsk. Se tabell 6. for oversikt over alle bakgrunnsvariablene.

Dataene for bakgrunnsvariablene viser at barnas fødselsår er svært spredt og rangerer fra 2002 til 2017. Det er jevn spredning i alder, men et flertall som er født i 2014 og utgjør 18,5 % av dataene. Det ble dannet en ny variabel, «aldersgrupper», hvor alder på barnet ved undersøkelsestidspunkt ble delt inn i tre grupper (Gruppe 1 = 0-7 år, Gruppe 2 = 8-12 år, og Gruppe 3 = 13-17 år). Som vi kan se i tabell 6. er det flest antall respondenter i den yngste gruppen, og gruppen 13-17 år har færrest informanter. Det er totalt ni gutter og atten jenter som representeres i denne studien via sine foreldre.

Videre ble det også undersøkt mer om andre forhold i familiene. Herunder relasjon til barnet, der et flertall er mødre med 81,5 %, far 14,8 % og annet 3,7 %. Det ble også undersøkt foresattes yrkesmessige status. Her kom det frem at flertallet er yrkesaktive på heltid. Flertallet av respondentene svarer også at de enten har samboer eller er gift. Kun tre av informantene var

enslige, (11,1 %). De to resterende bakgrunnsvariablene viser at flertallet av foreldrene som har svart på surveyen har ansvar for andre barn under 18 år, samt at de fleste har norsk som morsmål.

Tabell 6. oversikt over bakgrunnsvariabler

	DSD utvalget
	<i>n</i> (%)
<b>Barn</b>	27 (100)
Gutt	9 (33)
Jente	18 (67)
Alder 0-7 år	14 (52)
Alder 8-12 år	8 (30)
Alder 13-17 år	4 (18)
<b>Foreldre</b>	
Mor	22 (81)
Far	4 (15)
Annet	1 (4)
Samboer, gift	22 (89)
Norsk morsmål	23 (85)
Ansvar for andre barn under 18 år	24 (89)
Yrkesaktiv heltid	18 (67)
Yrkesaktiv deltid	5 (18)
Hjemmeværende, arbeidsledig, ufør	4 (15)
Utdanning grunnskole, videregående	5 (18)
Høyere utdanning 1-3 år	9 (33)
Høyere utdanning 4 år eller mer	13 (48)
Bosted Helse Sør-Øst	17 (63)
Bosted Helse Vest, Midt og Nord	10 (37)

#### 4.1.4 Deskriptiv statistikk av summeskårer

Vi benytter deskriptiv statistikk for å avdekke og synliggjøre informasjonen i et innsamlet materiale, ofte omtalt som 'rådata'. Deskriptiv eller beskrivende statistikk er tall som oppsummerer viktige sider ved dataene, samt hvor dataene ligger samlet også omtalt som et estimat på sentral tendens (Cumming og Calin-Jageman, 2017, s. 51). I denne studien er beskrivende statistikk nødvendig for å belyse problemstillingen «*Hvordan er foreldrenes vurdering av livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, og hvilken betydning kan diagnosen ha på trivsel og psykososial helse i skolen og barnehage?*»

Etter å ha undersøkt både frekvenstabeller og boksdiagram (se vedlegg) kommer det frem at dataene har noen uteliggere som skiller seg fra resten av dataene. Derfor ble det utført analyser der uteliggere var både ekskludert og inkludert for å undersøke hvor mye de ekstreme verdiene påvirket resultatene. Ulikhetene på de to deskriptive analysene var forholdsvis små, og med et ønske om å ikke redusere mengde data i et allerede smått utvalg falt valget på å inkludere identifiserte uteliggere. Imidlertid vil «avkortet gjennomsnitt» presenteres i tillegg til aritmetisk gjennomsnitt. Et avkortet gjennomsnitt (trimmed/truncated mean) vil trimme for uteliggere, der de laveste og høyeste 5 % av dataene blir ekskludert, og de resterende 90 % blir brukt til å kalkulere gjennomsnittet (Norušis, 2011, s. 119), derfor er det avkortede gjennomsnittet mindre følsom for uteliggere, men vil fremdeles gi et rimelig estimat av sentralverdi.

Dersom variablene ikke følger en normal fordeling kan mål som gjennomsnitt ( $\bar{x}$ ) være misvisende. Gjennomsnitt er mer følsom for ekstreme punkter og stor varians i dataen. Derfor inkluderes også median som et estimat for sentraltendens. Median rangerer dataene i rekkefølge fra høyest til lavest verdi for deretter å markere midten i fordelingen. På denne måten vil ikke ekstreme punkter påvirke resultatet stort. Derimot ekskluderer det kanskje viktig informasjon om spredning i dataene. Vi tolker tabell 7. i lys av de høyeste og laveste verdiene det er mulig å oppnå på hvert måleinstrument i forhold til retningslinjene (se kapittel 3.3.). I PedsQL rangerer verdiene fra 0 til 100, hvor 100 representerer optimal skåre i hvert domene. I SDQ er 10 den høyeste mulige skåren på hvert domene, den laveste skåren er 0 og den høyeste totalskåren er 40, som representerer høyere grad av emosjonelle og atferdsmessige symptomer (inkluderer ikke skåren for prososialatferd). I Likhhet med PedsQL skåres også WHOQOL-BREF på en skala der 100 representerer optimal skåre, og 0 er lavest mulig skåre. Tabell 7. viser deskriptiv statistikk for de tre måleinstrumentene og subskalaer.

Tabell 7. Deskriptiv statistikk på PedsQL, SDQ og WHOQOL-BREF.

Items	N	missing	mean	Trimmed mean 5%	Median	Confidence interval for mean		Std. deviation
						Lower	Upper	
<b>Pediatric Quality of life</b>								
Fysisk fungering	26	1	75,80	78,24	83,25	65,39	86,18	25,74
Følelsesmessig fungering	26	1	66,15	78,24	70,00	58,23	74,07	19,60
Sosial Fungering	26	1	80,58	83,40	90,00	70,84	90,30	24,10
Fungering i skole og barnehage	26	1	68,10	69,76	70,00	58,06	78,08	24,80
Psykososial fungering	26	1	71,60	73,64	78,30	63,20	80,01	20,80
Total livskvalitet	26	1	73,06	75,30	83,15	64,44	81,68	21,34
<b>Strength and difficulties Questionnaire</b>								
Emosjonelle vansker	26	1	3,26	3,14	2,00	2,21	4,31	2,60
Atferdsmessige symptomer	26	1	1,80	1,74	2	1,24	2,36	1,38
Hyperaktivitet	26	1	4,07	3,97	3,5	2,89	5,25	2,92
Venneproblemer	26	1	2,50	2,31	2,00	1,57	3,42	2,28
Prososialatferd	26	1	8,34	8,56	9,00	7,52	9,16	2,00
Total skåre	26	1	11,65	11,17	10,00	9,29	13,91	5,59
<b>WHOQOL-BREF</b>								
Fysisk funksjon	26	1	77,10	77,51	81,00	71,81	82,41	13,12
Psykisk funksjon	26	1	77,46	77,64	78,00	73,55	81,37	9,68
Sosiale forhold	25	2	74,96	74,95	75,00	69,63	80,28	12,89
Miljø	26	1	79,11	79,14	75,00	74,29	83,93	11,93

Første inntrykket av tabell 7. er at gjennomsnittet for PedsQL ligger relativt høyt for alle de seks subskalaene. Det laveste gjennomsnittet er subskalaen for følelsesmessig fungering ( $\bar{x} = 66,15$ ), etterfulgt av fungering i skole og barnehage ( $\bar{x} = 68,10$ ). De andre subskalaene har et høyere gjennomsnitt ( $\bar{x} > 70$ ), hvor sosial fungering er skalaen som innehar det høyeste gjennomsnittet ( $\bar{x} = 80,58$ ). Imidlertid kan vi se noe differanse mellom gjennomsnitt, avkortet gjennomsnitt og median. Dette indikerer at det trolig er noen ekstreme verdier (outliers) som påvirker gjennomsnittet i større grad enn avkortet gjennomsnitt og median. For fungering i skole og barnehage virker de ulike målene for sentral tendens som tilnærmet like, da både aritmetisk og avkortet gjennomsnitt i tillegg til median, er nærliggende 70 i skåre. Indeksen for følelsesmessig fungering viser større differanse mellom gjennomsnitt ( $\bar{x} = 66,15$ ) og avkortet gjennomsnitt ( $=78,24$ ). Dette indikerer at skåren har noen lave punkter som trekker det aritmetiske gjennomsnittet ned, når ekstrem punktene ble fjernet gikk gjennomsnittet betydelig opp med over 10 poeng. Medianen viser generelt høyere verdier enn det aritmetiske gjennomsnittet, som kan vitne om en skjevhet mot mindre verdier (Norušis, 2011, s. 85).

Resultatene fra PedsQL bærer preg av høyt standard avvik, samt stort konfidensintervall. Standardavvik gir informasjon om hvor spredt dataene er og gir et estimat på hvor sikker vi kan være på resultatene gjennomsnittet gir. Formelt sagt er det et mål på spredning fra gjennomsnittet (mean  $\pm$  SD) (Field, 2016, s. 153). Imidlertid hevder Field (2016) at mål som konfidensintervall (CI) og standardavvik (SD) ikke er optimalt dersom dataene ikke følger en normal distribusjon. Likevel benyttes SD og CI for å få en ide over hvor spredt dataene er fra gjennomsnittet, ettersom målet ikke er å predikere eller generalisere til den respektive populasjonen. Standardavviket er relativt høyt i alle subskalaer (SD  $> 19$ ) hvilket antyder at dataverdiene viser spredning, og inneholder både høyere og lavere punkter i forhold til gjennomsnittet. Funnene i den deskriptive statistikken viser at enkelte subskalaer i PedsQL er noe nedsatt i forhold til optimal skåre (100). Særlig følelsesmessig fungering og fungering i skole og barnehage ser ut til å ha lavere mål på sentral tendens enn for eksempel sosial fungering som er skåret ganske høyt.

Videre viser tabell 7. resultatene fra SDQ at resultatene noe spredt mellom de ulike indeksene. Det er derimot ikke store forskjeller mellom aritmetisk gjennomsnitt, trimmet gjennomsnitt og median. Prososial atferd skåren er relativt høy i forhold til maks skåre ( $\bar{x} = 8,34$  av 10,00). Dette er subskalaen som blir skåret i positiv retning, en skåre på 10 indikerer optimal skåre. En skåre på 8,34 kan tolkes som at foreldrene anser at deres barn viser god prososial atferd, som for

eksempel at de oppleves som hjelpsom og positiv. Videre viser tabellen at atferdsmessige symptomer ( $\bar{x} = 1,80$ ) og vansker i forhold til jevnaldrende ( $\bar{x} = 2,50$ ) er minimal. Skalaen for emosjonelle vansker ( $\bar{x} = 3,26$ ) og hyperaktivitet ( $\bar{x} = 4,07$ ) er noe høyere. Imidlertid viser ikke skårene på SDQ noen utpregede vanskeområder dersom vi skal tolke resultatene i lys av studien presentert tidligere (se kap. 3.3.3).

WHOQOL-BREF undersøker som nevnt tidligere livskvalitet hos foreldrene med 26 spørsmål. Tabell 7. viser at skårene hos respondentene er ganske jevn og høy med  $\bar{x} > 70$  på alle skalaene. Forskjellen mellom gjennomsnitt, trimmet gjennomsnitt og median er minimal. I tillegg er det mindre varians i både konfidensintervall og standardavvik i forhold til PedsQL som antyder at det er mindre spredning i datapunktene. Som nevnt tidligere er variablene i WHOQOL-BREF preget av flere manglende verdier, derfor tolkes ikke resultatene nærmere.

## **4.2 Resultater knyttet til forskningsspørsmål**

I dette delkapittelet vil resultater knyttet direkte til hvert enkelt forskningsspørsmål (se kapittel 2.5) bli fremstilt ved bruk av statistiske analyser i tabeller og grafer.

### **4.2.1 Er det ulikheter i rapportert livskvaliteten hos barn, fordelt på ulike aldersgrupper?**

Tidligere har deskriptiv statistikk på de ulike måleinstrumentene blitt presentert, uten å ta hensyn til ulike bakgrunnsvariabler. For å belyse forskningsspørsmålet ovenfor presenteres derfor deskriptiv statistikk på de ulike aldersgruppene innledningsvis, før forskjellene blir undersøkt nærmere med Kruskal-Wallis test.

Resultatene fra tabell 8. for å sammenligne gjennomsnitt mellom ulike aldersgrupperinger, viser at barn i aldersspennet 0-7 år og 8-12 år skårer likt på total livskvalitetsskåre ( $\bar{x} = 77,6$ ). Imidlertid er den gjennomsnittlige skåren for livskvalitet hos tenåringsgruppen (13-17 år) betydelig lavere enn for de to yngre aldersgruppene ( $\bar{x} = 66,75$ ). Tabellen belyser at tenåringene har lavere gjennomsnitt skåre på alle subskalaene sammenlignet med de i aldersspennet 0-7 år, med unntak av skåren på sosial fungering. Særlig skåren for fungering i barnehage og skole og fysisk fungering er redusert hos tenåringene sammenlignet med de to yngre aldersgruppene. De yngste barna er skåret lavere på fysisk fungering sammenlignet med barna i 8-12 års alderen. Barn i alderen 8-12 år er skåret lavt på følelsesmessig fungering ( $\bar{x} = 60,6$ ), som er den laveste subskalaskåren for denne aldersgruppen.

Tabell 8. Deskriptiv statistikk PedsQL (alder)

	<b>Fysisk fungering</b>	<b>Følelsesmessig fungering</b>	<b>Sosial fungering</b>	<b>Fungering i skole og barnehage</b>	<b>Psykososial fungering</b>	<b>Total livskvalitet</b>
<b>(1) 0-7 år</b>						
mean	79,2	73,1	83,1	74,2	76,8	77,6
n	13	13	13	13	13	13
median	84,4	75,0	90,0	70,0	78,3	82,6
<b>(2) 8-12 år</b>						
Mean	85,5	60,6	84,4	75,0	73,3	77,6
N	8	8	8	8	8	8
<b>(3) 13-17 år</b>						
Median	93,8	60,0	87,5	85,0	80,0	84,8
Mean	63,5	68,8	85,0	51,3	68,3	66,75
N	4	4	4	4	4	4
Median	66,1	72,5	92,5	52,5	72,5	70,5

\*Grouping variable: 1 = 0-7 år, 2= 8-12 år, 3= 13-17 år.



Skåren på psykososial fungering viser også noe variasjon mellom de ulike aldersgruppene, der tenåringsene skårer lavere enn de to yngre gruppene ( $\bar{x}=68,3$ ). De tre aldersgruppene er skåret relativt høyt på sosial funksjon ( $\bar{x} > 80$ ). Den deskriptive tabellen antyder at livskvaliteten hos barna (rapportert av foreldrene) er ulik for de tre aldersgruppene.

Videre benyttes Kruskal-Wallis testen for å undersøke om det er signifikante forskjeller mellom de tre aldersgruppene og de ulike domenene av livskvalitet rapportert av foreldrene. Kruskal-Wallis er en rang-basert ikke-parametrisk signifikans test og benyttes fordi dataene ikke er normalfordelt. Kruskal-Wallis er et ikke-parametrisk alternativ til enveis variansanalyse (ANOVA), som undersøker om det er en sammenheng mellom to variabler, eller om fordelingen av variablene er den samme i alle grupper ved å sammenligne summen av rekker (Norusis, 2011, s. 412).

Kruskal Wallis testen illustrert i tabell 9. viser ingen signifikante forskjeller mellom de tre gruppene på de ulike indeksene  $p > 0,05$ . Dette antyder at ulikhetene i livskvalitet mellom de tre aldersgruppene ikke er av signifikant betydning. Begrensninger i utvalg kan prege utfallet av slike analyser samt hindre signifikante funn på grunn av manglende statistisk styrke. Derfor inkluderes et «box plot» for å vise spredningen i de indeksene som viste størst variasjoner i gjennomsnitt belyst i tabell 9. i tillegg til psykososial helse.

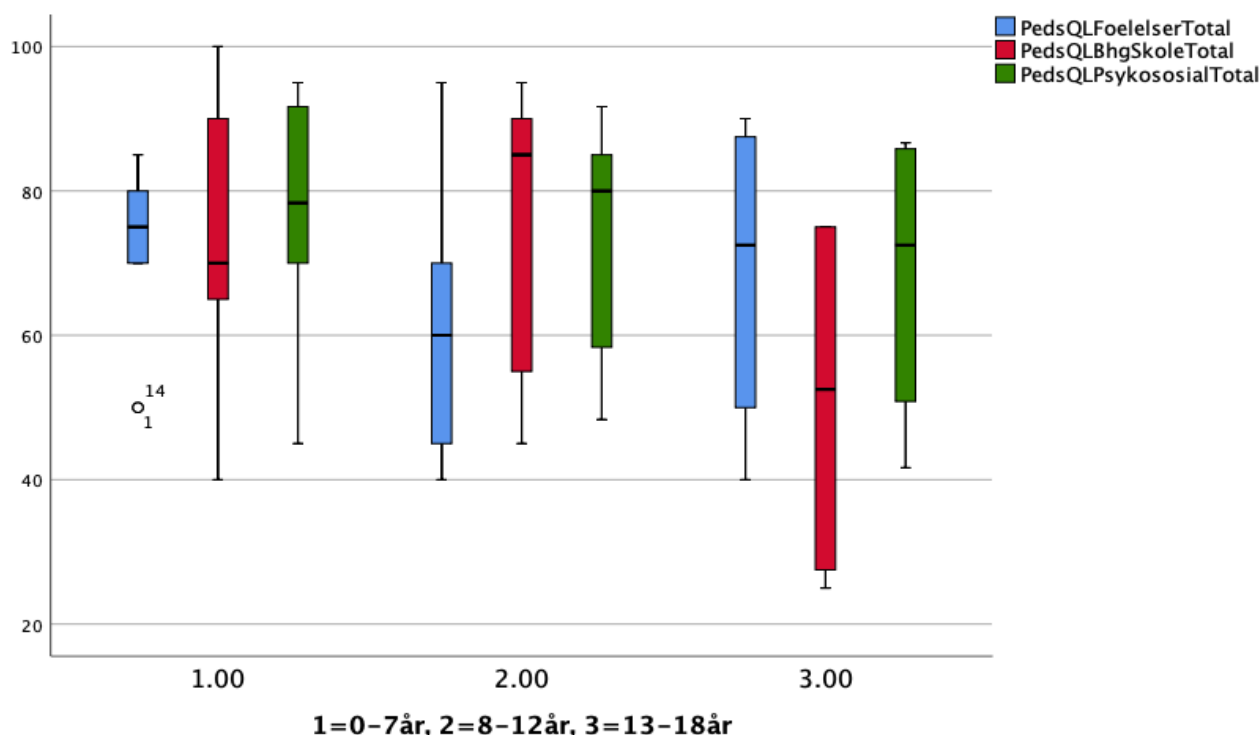
Tabell 9. Kruskal Wallis

	Fysisk fungering	Følelsesmessig fungering	Sosial fungering	Fungering i barnehage eller skole	Psykososial fungering	Total livskvalitet
<b>Kruskal-Wallis H</b>	1.741	3.188	.084	2.261	.597	.509
<b>df</b>	2	2	2	2	2	2
<b>Asymp. Sig.</b>	.419	.203	.959	.323	.742	.775

a. Kruskal Wallis Test

b. Grouping variable: 1=0-7år, 2=8-12år, 3=3-17år

Figur 1. Box Plot av de ulike indeksene fordelt på alder.



Boksdigrammet presentert i figur 1. illustrerer subskalaene følelsesmessig fungering (PedsQLFoelelserTotal, blå), fungering i barnehage og skole (PedsQLBhgSkoleTotal, rød) og psykososial fungering (PedsQLPsykososialTotal, grønn) fordelt i de tre aldersgruppene. Den horisontale linjen i hver boks er medianen, som angir tyngdepunktet i fordelingen (Ringdal, 2013, s. 285). Linjene på utsiden av boksene viser verdiene i dataene som er lengst borte fra medianen på hver side. Boksdigrammet viser spredning spesielt mellom de yngste og de eldste barna. Selv om ulikhetene ikke er av signifikant betydning ser vi at tenåringsgruppen har de laveste skårene på fungering i skole og barnehage, mens de yngste og mellomste barna ligger ganske jevnt i den illustrerte grafen. Derimot viser linjene på utsiden av boksen til gruppe 1 at dataene har både høyere og lavere verdier. Videre ser vi at barn i alderen 8 til 12 år ligger lavere enn de to andre aldersgruppene i indeksen for følelsesmessig fungering.

Oppsummert viser resultatene fra de ulike analysene at det trolig er forskjeller i livskvalitet mellom de tre aldersgruppene, selv om ulikhetene ikke er av signifikant betydning. Særlig følelsesmessig fungering og fungering i skole og barnehage viser tendens til å være nedsatt i alderen 8-18 år sammenlignet med de yngste barna (0-7 år). Tenåringsgruppen er

gjennomsnittlig skåret lavere enn de yngre barna, og vi kan se tendenser til at livskvaliteten er noe nedsatt i denne aldersgruppen.

#### **4.2.2 Er livskvalitet hos barn med DSD forskjellig mellom kjønn?**

For å belyse forskningsspørsmålet benyttes deskriptiv statistikk gjengitt i tabell 10. og Mann-Whitney U test. For å få mest mulig pålitelig resultat av de påfølgende analysene ble eventuelle outliers identifisert i gruppekategoriene med boksediagram. Det var en ekstrem outlier i «jente» gruppen, som ble filtrert bort. De ekstreme verdiene påvirket resultatet betydelig i alle indeksene, både standardavvik, median og mean, selv etter å undersøke «trimmed mean». Outlieren ble derfor filtrert bort i påfølgende analyser.

Tabell 10. viser at gjennomsnittet i de ulike indeksene er noe ulike fordelt på kjønn. Vi ser at det høyere gjennomsnitt hos guttene vedrørende følelsesmessig fungering, sosial fungering, fungering i barnehage/skole og psykososial fungering. Imidlertid er jentene skåret høyere på skalaen for fysisk fungering ( $\bar{x}=82,14$ ), med 10 poeng høyere enn guttene ( $\bar{x}=72,57$ ). Videre viser medianen enda større differanse mellom kjønn på fysisk fungering, hvor guttene har en median på 68,75 og jentene 86,61. Funnene antyder at guttene har nedsatt fysisk fungering i forhold til jentene. Videre er jentene skåret lavest på indeksen for følelsesmessig fungering ( $\bar{x}=64,06$ ), imidlertid er medianen noe høyere (70), men fremdeles lavere enn følelsesmessig fungering skåret hos guttene ( $\bar{x} = 76,11$ ). Begge gruppene er skåret høyt på sosial fungering, hvor guttene har et gjennomsnitt på 90 og jentene 80,31, hvilket antyder at begge gruppene har tilfredsstillende eller god sosial funksjon. Den gjennomsnittlige skåren på fungering i barnehage og skole er lavere hos jentene sammenlignet med gjennomsnittet hos guttene. Den totale skåren på livskvalitet viser ikke store forskjeller mellom kjønn (gutt:  $\bar{x} = 77,69$ , jente:  $\bar{x} = 74,82$ ). Derimot kan vi se at noen av subskala skårene er ulike på tvers av kjønn, dette undersøkes videre med en ikke-parametrisk signifikans test.

For å undersøke gruppeforskjeller benyttes Mann-Whitney U test. Testen er ikke-parametrisk analyse mellom to grupper for å undersøke signifikans, som vil si at den benyttes for å sammenligne forskjeller mellom to grupper der variablene ikke følger en normal distribusjon. Mann Whitney U er et alternativ til den parametriske analysen: uavhengig t-test. Vi benytter Mann Whitney U for å undersøke om gjennomsnittet mellom de to gruppene er like ved å sammenligne den gjennomsnittlige rangeringen mellom hver gruppe (Norusis, 2006, s. 401).

Tabell 10. Deskriptiv statistikk PedsQL fordelt i kjønn

<b>Kjønn</b>	<b>Fysisk fungering</b>	<b>Følelsesmessig fungering</b>	<b>Sosial fungering</b>	<b>Fungering i barnehage og skole</b>	<b>Psykososial fungering</b>	<b>Total livskvalitet</b>	
<b>Gutt</b>	Mean	72,57	76,11	90,00	75,00	80,37	77,69
	N	9	9	9	9	9	9
	Std. Deviation	23,58	11,12	17,14	24,37	14,86	17,02
	Median	68,75	75,00	100,00	80,00	86,67	83,70
<b>Jente</b>	Mean	82,14	64,06	80,31	68,44	70,94	74,82
	N	16	16	16	16	16	16
	Std. Deviation	20,17	17,34	18,02	19,21	15,79	16,29
	Median	86,61	70,00	85,00	70,00	76,67	81,05

Tabell 11 – Mann-Whitney U test

	Fysisk fungering	Følelsesmessig fungering	Sosial fungering	Fungering i skole eller barnehage	Psykososial fungering	Total livskvalitet
<b>Mann-Whitney U</b>	55,00	40,50	45,50	54,00	40,50	67,00
<b>Wilcoxon W</b>	100,00	176,50	181,50	190,00	176,50	203,00
<b>Z</b>	-,967	-1,80	-1,540	-1,024	-1,79	-,28
<b>Asymp. Sig. (2-tailed)</b>	,333	,072	,124	,306	,074	,77
<b>Exact Sig. [2*(1-tailed Sig.)]</b>	,357 <sup>b</sup>	,074 <sup>b</sup>	,136 <sup>b</sup>	,329 <sup>b</sup>	,074 <sup>b</sup>	,80 <sup>b</sup>

a. Gruppert etter variabel: Barnets kjønn

b. Not corrected for ties.

Mann-Whitney U test gjengitt i tabell 11. viser en tendens til signifikans mellom kjønn på indeksene for følelsesmessig funksjon ( $p = 0,07$ ) og psykososial funksjon ( $p = 0,07$ ). Dette illustrerer at det trolig er forskjeller mellom kjønn på følelsesmessig fungering og psykososial fungering, men at forskjellen ikke er statistisk signifikant. Det er heller ikke noen signifikante forskjeller mellom den totale skåren på livskvalitet mellom gutter og jenter, som også støttes i fremstillingen av gjennomsnitt i tabell 10. Oppsummert viser resultatene fra både deskriptiv statistikk og signifikanstest at særlig følelsesmessig fungering og psykososial fungering viser noen ulikheter mellom gruppene, der jentene er skåret lavere på de to områdene sammenlignet med guttene. Imidlertid er det ingen signifikante forskjeller i rapportert livskvalitet mellom kjønn.

#### **4.2.3 Hvilke faktorer viser sammenheng med livskvalitetskåren hos barnet?**

For å undersøke hvilke variabler som henger sammen med den totale livskvalitetskåren hos barnet, målt av foresatte, benyttes korrelasjonsanalyse. Begrepet korrelasjon viser til statistisk sammenheng mellom to variabler (Ringdal, 2013, s. 305). En korrelasjonsanalyse kan utdype hvorvidt og i hvilken grad variabler henger sammen med andre variabler, ved å fortelle oss om det er sannsynlig statistisk samvariasjon mellom to variabler (Eikemo og Clausen, 2012, s. 85). Målet er ikke å poengtere kausalitet mellom variabler, men vurdere grad av samvariasjon. For å måle korrelasjon på ordinalnivå der dataene ikke er normal fordelt er Spearmans rangkorrelasjonskoeffisient ( $r_s$ ) å foretrekke fordi analysen bygger på ranger i dataverdiene (Field, 2016, s.455). Spearmans  $r_s$  måler styrken av assosiasjon mellom to variabler. Koeffisientene vil variere mellom -1 og 1, jo større absolutt verdi av koeffisienten er, desto sterkere er forholdet mellom variablene. En verdi rundt 0 vil indikere lav eller ingen korrelasjon mellom variablene. Det blir presentert alternative tolkninger av resultatene ettersom vi ikke vet hvilke variabel som påvirker, dette angår retningsproblemet, og menes vanskeligheten med å avgjøre hva som er årsak og hva som er virkning (Lund, 2002, s. 117).

Det er ingen spesifikk regel for å avgjøre hvilken størrelse på korrelasjonen som anses som sterk, moderat eller svak. Tolkningen av koeffisienten avhenger delvis av studie, og om det som studeres er vanskelig å måle. I denne studien er følgende tolkning av korrelasjonskoeffisienten Spearmans  $r_s$  lagt til grunn: korrelasjoner over 0,6 anses som sterk, mellom 0,40 – 0,60 anses som moderat, og korrelasjoner under 0,2 betraktes som svake. Signifikante korrelasjoner er merket i tabellene (\*/\*\*).

Tabell 12. Korrelasjoner mellom PedsQL subskalaer og PedsQL total

	1.	2.	3.	4.	5.	6.
1. Fysisk fungering	--	.41*	.51**	.67**	.62**	.89**
2. Følelsesmessig fungering		--	.44*	.59**	.80**	.62**
3. Sosial fungering			--	.73**	.81**	.75**
4. Fungering i barnehage og skole				--	.92**	.86**
5. Psykososial funksjon					--	.88**
6. Total livskvalitet						--

PedsQL: Pediatric Quality of Life  
 Spearman's korrelasjoner ( $p < 0.05$ ) \*, ( $p < 0.01$ ) \*\*.



Tabell 13. Korrelasjoner mellom subskalaer: SDQ og PedsQL

	S. Emosjonelle vansker	S. Atferdsvansker	S. Hyperaktivitet	S. Sosiale problemer	S. Prosocialatferd	SDQ Total
1. Fysisk fungering	-.32	-.32	-.45*	-.13	.12	-.58**
2. Følelsesmessig fungering	-.76**	-.10	.15	-.24	-.10	-.47*
3. Sosial fungering	-.02	-.16	.02	-.48*	-.04	-.27
4. Fungering i barnehage og skole	-.31	-.24	-.24	-.04	.03	-.41*
5. Psykososial fungering	-.46*	-.22	-.04	-.28	.02	-.50*
6. Total livskvalitet	-.40	-.33	-.30	-.25	.15	-.49*

S: Strength and Difficulties Questionnaire. PedsQL: Pediatric Quality of Life (1-6)

Spearman's korrelasjoner ( $p < 0.05$ ) \*, ( $p < 0.01$ )\*\*.

Tabell 14. Korrelasjoner mellom subskalaer mellom WHOQOL-BREF og PedsQL

	WHO fysisk funksjon	WHO Psykisk funksjon	WHO Sosiale forhold	WHO Miljø
1. Fysisk fungering	.33	.42*	.15	.43*
2. Følelsesmessig fungering	.28	.43*	.10	.33
3. Sosial fungering	.14	.02	.20	.27
4. Fungering i barnehage og skole	.32	.24	.15	.51*
5. Psykososial fungering	.28	.27	.16	.45*
6. Total livskvalitet	.36	.36	.22	.51*

WHO: World Health Organization Quality of Life.

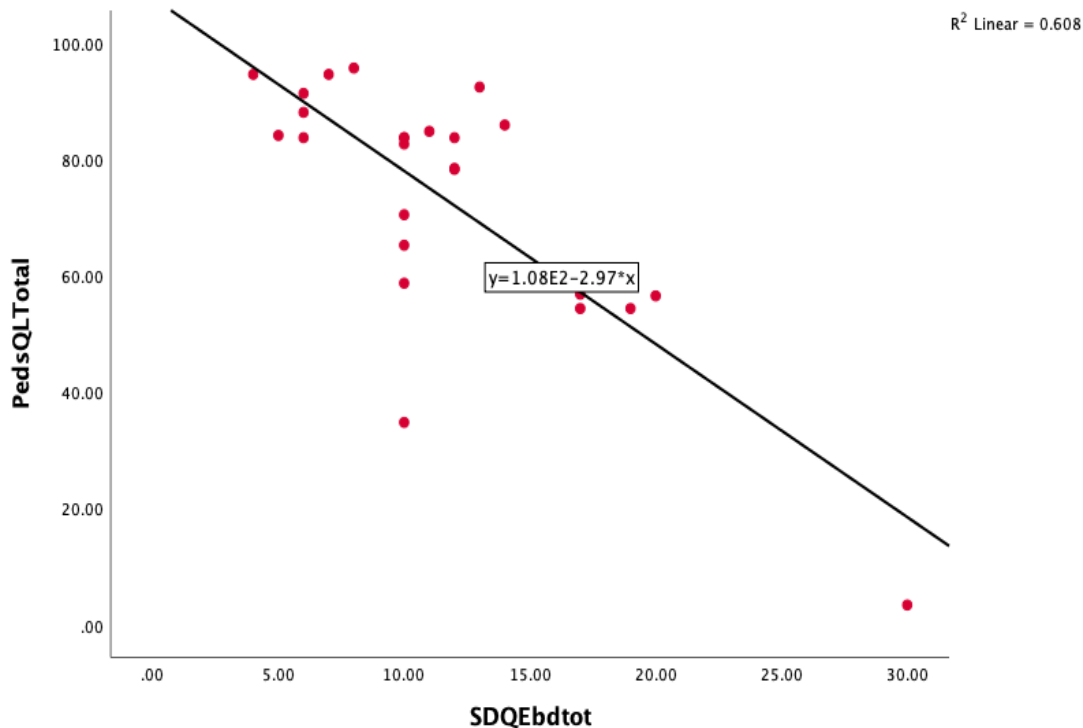
PedsQL: Pediatric Quality of Life (1-6)

Spearman's korrelasjoner ( $p < 0.05$ )\*, ( $p < 0.01$ )\*\*.

Korrelasjonsanalysen gjengitt i tabell 12. viser signifikante korrelasjoner mellom de ulike indeksene i PedsQL, og at alle faktorene (indeksene) viser samvariasjon med den totale målte livskvaliteten. Ifølge korrelasjonsanalysen er det barnets skåre på fysisk fungering som har høyest grad av samvariasjon med den totale livskvaliteten ( $r_s = .89$ ) basert på svarene gitt av foreldrene. Vi kan tolke resultatet slik at barnets fysiske fungering har innvirkning på opplevd livskvalitet. God fysisk funksjon vil dermed trolig øke livstilfredshet, eller motsatt. Videre viser korrelasjonsanalysen at både psykososial fungering ( $r_s = .88$ ) og fungering i barnehage og skole ( $r_s = .86$ ) har statistisk signifikant sammenheng med livskvaliteten med korrelasjonskoeffisient på et høyt nivå. Slike sterke samvariasjoner kan indikere at variablene er av stor betydning for den totale livskvaliteten. Følelsesmessig fungering er den variabelen med lavest samvariasjon med total livskvalitet, imidlertid er den fremdeles statistisk signifikant ( $r_s = .62$ ) og anses som betydningsfull for den totale livskvaliteten målt med PedsQL.

Korrelasjonsanalysen gjengitt i tabell 13. viser at det er signifikante korrelasjoner mellom målt livskvalitet (PedsQL) og emosjonelle og atferdsmessige symptomer (SDQ Total). Korrelasjonsanalysen viser at det er signifikant korrelasjon mellom totalt målt livskvalitet og total vanskelighets-skåre ( $r_s = -.60$ ). Imidlertid er korrelasjonen negativ, som vil si at øking i en variabel er assosiert med reduksjon i en annen. I dette tilfellet er trolig økt livskvalitet assosiert med en reduksjon av atferdsmessige og emosjonelle symptomer, eller motsatt. På subskala-nivå er det sterk korrelasjon mellom indeksen for følelsesmessig fungering i PedsQL og emosjonelle vansker i SDQ, med  $r_s = -0,76$ . Som vitner om at god følelsesmessig fungering har en sammenheng med lav skåre på emosjonelle vansker. Tilsvarende er det også en moderat korrelasjon mellom emosjonelle vansker og psykososial helse  $r_s = -0,45$ . Indeksen for sosial fungering og problemer i forhold til jevnaldrende viser også en moderat korrelasjon  $r_s = -0,48$ , der høy skåre på sosial fungering ser ut til å ha en sammenheng med lavt rapportert problemer i forhold til jevnaldrende eller motsatt.

For å illustrere sammenhengen mellom livskvalitet målt i PedsQL og emosjonelle og atferdsmessige symptomer skåret med SDQ ble det undersøkt nærmere med et spredningsplott.



Figur 2. Spredningsplott PedsQLTotal (total livskvalitet) SDQEbdtot (Total skåre på atferdsmessige og emosjonelle symptomer).

Spredningsplott i Figur 2. illustrerer forholdet mellom variabelen PedsQLTotal som representerer totalt målt livskvalitet hos barnet, og SDQEbdtot som er total skåre på atferdsmessige og emosjonelle symptomer (Cumming og Calin-Jageman, 2017, s. 294). Begge skårene er gitt av foreldrene på vegne av sitt eget barn, hvert punkt i spredningsplottet representerer en informant. Flertallet av datapunktene (informantene) er nærliggende linjen, hvorav det er en uteligger som skiller seg fra resten av dataene. Grafen illustrerer at en øking i atferdsmessige og emosjonelle symptomer er assosiert med lavere livskvalitet. Resultatet fra grafen viser at de informantene som skårer forholdsvis lavt på livskvalitet (skår rundt 60), ofte rapporterer om en økt mengde atferdsmessige og emosjonelle symptomer (skår rundt 20). Vi ser også en informant som har en total skåre på 30 i atferdsmessige og emosjonelle symptomer, og derav tilsvarende meget lav livskvalitet (< 20). Videre ser vi at de som er skåret høyt (> 80) på livskvalitet, også har forholdsvis lav skåre på atferdsmessige og emosjonelle symptomer (rundt 5-15). Oppsummert kan vi si at det er en sammenheng mellom livstilfredshet og grad av emosjonelle og atferdsmessige symptomer, og en reduksjon av slike symptomer kan trolig ha positiv innvirkning på livstilfredsheten hos barnet eller motsatt.

Korrelasjonsanalyse gjengitt i tabell 14. viser at det er noen sammenhenger mellom livskvalitet hos barnet rapportert av foreldre og livskvalitet hos foreldrene selv i enkelte subskalaer. Fysisk funksjon målt hos barnet og psykisk funksjon hos foresatte vitner om en moderat sammenheng ( $r_s = .42$ ). Videre vitner korrelasjonen mellom psykisk funksjon hos forelder og følelsesmessig fungering hos barnet også om en moderat sammenheng ( $r_s = .43$ ).

Det finnes også en samvariasjon mellom foreldrenes tilfredshet med miljø og barnets fungering i skole eller barnehage  $r_s = 0,51$  og barnets psykososiale helse  $r_s = 0,45$ . Korrelasjonen med høyest grad av samvariasjon er foreldres tilfredshet med miljø og barnets totale livskvalitet ( $r_s = .51$ ). Hvilket kan tolkes slik at foreldres tilfredshet med miljøet er av betydning for barnets livskvalitet, samt psykososiale helse og funksjon i barnehage eller skole. Imidlertid viser korrelasjonsanalysen at korrelasjoner mellom livstilfredshet hos forelder og livskvalitet hos barn på de ulike subskalaene kun er moderate eller lave. Vi kan tolke det slik at livstilfredshet hos forelder viser noe betydning for barnets livskvalitet, men i denne studien ser vi ingen direkte sterk sammenheng mellom livskvalitet målt hos barnet og livskvalitet målt hos foreldre.

Oppsummert viser korrelasjonsanalysen Spearmans *rho* at alle subskalaene som inngår i beregning av livskvalitet har sterk sammenheng med hverandre målt med foreldrerapportert PedsQL (se tabell 12.). Enkelte subskalaer ser ut til å ha en sterkere sammenheng enn andre. I lys av korrelasjonsanalysen er det fysisk fungering, fungering i skole og barnehage og psykososial fungering som ser ut til å være faktorene som påvirker livskvalitet hos barnet mest. Videre viser tabell 13. at livskvalitet hos barnet kan ses i sammenheng med grad av atferdsmessige og emosjonelle symptomer, og at symptomene trolig har innvirkning på den totale livskvaliteten hos barnet. Imidlertid viste ikke analysen sterke sammenhenger mellom livskvalitet hos forelder og livskvalitet hos barnet (se tabell 14.).

#### **4.2.4 Hvilke faktorer har sterk sammenheng med barnets fungering i skole og barnehage?**

Korrelasjonsanalysen som er gjengitt i tabell 12. viser at det er noen sammenhenger mellom fungering i skole og barnehage og de andre subskalaene i PedsQL. Særlig foreldrenes rapportering av psykososial funksjon i PedsQL ser ut til å ha en sterk sammenheng med fungering i barnehage og skole ( $r_s = .92$ ). Det vises også signifikante korrelasjoner mellom fungering i skole og barnehage og sosial fungering ( $r_s = .73$ ). Dette indikerer at sosial fungering har betydning for fungering i barnehage og skole. For eksempel det å danne relasjoner og å

oppleve å ha venner er trolig av viktige elementer for god fungering i barnehage og skole. Imidlertid er verdt å nevne at tabellen viser statistisk signifikante korrelasjoner mellom alle subskalaene og fungering i skole og barnehage, som indikerer at alle aspekter ved livskvalitet er viktig for en optimal funksjon i skole eller barnehage.

Korrelasjonsanalysen i tabell 13. som viser til sammenheng mellom PedsQL og SDQ, illustrerer det er en moderat korrelasjon mellom den totale skåren for emosjonelle og atferdsmessige symptomer i SDQ og foreldrenes vurdering av barnas fungering i barnehage og skole ( $r_s = -.41$ ). Dette indikerer at det er et forhold mellom variablene, der høy skåre på funksjon i barnehage/skole assosieres med en redusert skåre på emosjonelle og atferdsmessige symptomer eller motsatt. Det kan tolkes slik at slike symptomer har noe innvirkning på skole/barnehage funksjon, og en reduksjon i emosjonelle og atferdsmessige symptomer trolig vil resultere i bedre fungering i skole eller barnehage. Imidlertid viser ikke analysen andre signifikante korrelasjoner mellom fungering i barnehage og skole, og SDQ subskalaer.

Videre viser korrelasjonsanalysen mellom WHOQOL-BREF og PedsQL (tabell 11.) få signifikante korrelasjoner. Kun en av variablene viser moderat korrelasjon med barnets funksjon i barnehage og skole, nemlig foresattes tilfredshet med miljø ( $r_s = .51$ ). Denne korrelasjonen kan indikere at miljøet hjemme har noe betydning for barnets fungering i barnehage eller skole.

## 5 Diskusjon

### 5.1 Oppsummering av sentrale funn knyttet til teoretisk forankring

Hensikten med denne studien var å undersøke livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling (DSD), opp imot mål på barnas atferdsmessige og emosjonelle symptomer og foreldrenes livskvalitet. Hovedfunnene fra studien tyder på at livskvaliteten hos barn med DSD er betydelig lavere enn hos barn i en normal populasjon. Livskvalitet viste seg å være lavere hos ungdommer over 12 år, særlig fungering i skolen, noe som kan indikere at disse årene kan være betydningsfulle ved utvikling av mistrivsel i skolen. Livskvalitet viste seg å være lik mellom gutter og jenter i denne studien, med tendens til dårligere følelsesmessig og psykososial fungering hos jentene. Barnas fungering i skole og barnehage hadde viste en klar sammenheng med foreldres tilfredshet med sitt miljø.

Foreldre-rapportert helsereelatert livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er lavere ( $\bar{x}=73,06$ ) sammenlignet med barn i normal populasjon ( $\bar{x}=85,29$ ) presentert i studien til Reinfjell og kollegaer (2006). Ved evaluering av hvert domene separat, viste dimensjonene som omfatter fungering i barnehage og skole, og følelsesmessig fungering en reduksjon i gjennomsnittskåre sammenlignet med hva som anses som godt, og er i terskelområdet for hva som anses som risiko. Sammenlignet med ungdommer i en normal populasjon (Reinfjell et al., 2006) har skolefungering et gjennomsnitt på 78,02 og følelsesmessig fungering på 77,15, i denne studien viser derimot fungering i skole og barnehage en gjennomsnittskåre på 68,10 og følelsesmessig fungering har en gjennomsnittskåre på 66,15. Generelt sett er gjennomsnittskårene i denne studien betydelig lavere enn funnene i studien til Reinfjell et al. (2006). Resultatene indikerer at foresatte identifiserer ulike vanskeligheter i barnets evne til å fungere i barnehage eller skole, og deres følelsesmessige funksjon. Funnene omkring nedsatt fungering i skole og barnehage støttes i andre studier av barn med DSD-tilstander (Jürgensen et al., 2014; Selveindran et al., 2017). I rapporten til Feragen og kollegaer (2019) poengteres det at flere tilstander kan medføre at barn og unge kan bli fortere sliten eller at de har dårlig stressmestringsevner, i tillegg til ulike lærevansker som kan ha konsekvenser for fungering i skole og barnehage.

### **Er det ulikheter i rapportert livskvalitet hos barn, fordelt på aldersgrupperinger?**

Studien tendens til varians i livskvalitet mellom aldersgrupper, der særlig ungdomsgruppen (12-17 år) viser tegn til noe redusert livskvalitet, selv om funnene ikke signifikante. Disse funnene samsvarer med forskning, der livstilfredshet i den norske populasjonen synker rundt 11-16 års alderen (Samdal et al., 2016). I en norsk studie belyses faktorer som selvbilde, gode venner og familierelasjoner som avgjørende for livskvalitet hos ungdommer (Helseth og Misvær, 2010). Funnene i denne studien viser at ungdomsgruppen skårer høyest på sosial fungering, men funksjon i skole er lav, hvilket er et noe overraskende funn ettersom sosiale funksjoner og forhold er presisert i forskning som avgjørende for å trives i skolen, samt at nedsatt sosiale og språklige funksjoner kan være assosiert med ulike DSD-tilstander. En stor del av forskningsartiklene som har blitt inkludert i denne studien fremhever også sosiale og emosjonelle risikofaktorer for DSD-gruppen, dette gjenspeiles imidlertid ikke i denne studien.

Videre viser funn i denne studien at ungdomsgruppen viser tegn til nedsatt fysisk fungering, som trolig kan ha en sammenheng med den nedsatte funksjonen i skole/barnehage. Forskning viser at barns fysiske fungering har stor innvirkning på barns og unges vekst, utvikling og generell helse (Le Menestrel og Perkins, 2007; Janssen & LeBlanc, 2010). Studien til Wæhre et al., (2019) viser at ungdommer med DSD hadde utfordringer når det gjaldt fysisk aktivitet, ofte forbundet med manglende utholdenhet og redusert stressmestring. Samt at det kan være vegring fra å delta i fysiske aktiviteter dersom det innebærer offentlig dusj og synliggjøring av variasjoner i kjønnsorganer. Dette er utfordringer som vil påvirke fungering i barnehage og skole, samt andre områder. Det er viktig å ta hensyn til at ungdomsgruppen er underrepresentert i denne studien, og vi kan derfor ikke legge mye tyngde i disse funnene.

### **Er livskvalitet hos barn med DSD forskjellig mellom kjønn?**

Totalt målt livskvalitet i denne studien viser ikke kjønnsforskjeller i gjennomsnitt, men viser at noen elementer ved livskvalitet kan tolkes som nedsatt i forhold til normal populasjonen. Analysen av målt livskvalitet i kjønnsgrupper viser tendens til signifikans på indeksene for følelsesmessig fungering og psykososial fungering, der jentene skårer lavere enn guttene. Studier på nasjonalt og internasjonalt nivå konkluderer med at helse relatert livskvalitet viser tydelige kjønnsforskjeller, der jenter skårer lavere og at deres livskvalitet synker ved stigende alder (Samdal et al., 2016). Forskningen vektlegger også at jenter uttrykker mest psykososiale problemer (Helseth og Lund, 2006; Kvarme, Haraldstad, Helseth, Sørnum og Natvik, 2009), hvilket støttes i denne studien. Evensen og Løvgren (2018) poengterer at resultatene fra slike



studier ofte bunner i at jenter er mer misfornøyd med eget utseende og rapporterer oftere enn gutter om helseplager, samt at jenter stadig rapporterer om psykososiale helseplager så vel som fysiske. Dette er særdeles viktig i forhold til elever med kroppslige variasjoner da tilstanden alene kan ha konsekvenser for enkeltes selvbylde og kroppsbilde. Å føle seg annerledes, og å se annerledes ut kan være en utfordring for selvbylde. I studien til Feragen et al. (2019) kommer det frem at halvparten av kvinnene nevnte at de var fornøyd med seg selv, men at det var spesifikke perioder med dårligere selvbylde, spesielt i tenårene. Det var også rapportert om følelser av annerledeshet og skam. Selv om vi i denne studien ikke kan konkludere eller vise til kausale årsaksforklaringer kan vi reflektere om rapportert nedsatt følelsesmessig og psykososial fungering kan ha en sammenheng med eventuelle utfordringer i møte med miljøet, herunder det å føle seg annerledes i møte med andre, og at dette vil prege selvbylde og kroppsbilde.

### **Hvilke faktorer viser sammenheng med den totale livskvalitetsskåren hos barna?**

Resultatene fra korrelasjonsanalyse gir bedre forståelse for hvilke faktorer som har størst innvirkning på livskvaliteten til barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i denne studien. Analysen viser at barns psykososiale helse, sosiale fungering og funksjon i skole og barnehage har størst samvariasjon med totalt målt livskvalitet. Dersom vi skal tolke resultatene i lys Bronfenbrenners (1979) teori for gjensidig påvirkning av miljø og individ, kan vi anta at disse elementene er særdeles viktig for hvor tilfreds barnet er med eget liv, og en reduksjon i disse vil påvirke livskvaliteten. Disse funnene støtter opp om tidligere forskning som viser at venner og skolesituasjonen er viktig for deres livskvalitet. Le Menestrel og Perkins (2007) viser at fysisk aktivitet har en positiv sammenheng med konsentrasjon, sosial fungering og skolefungering, hvilket støttes i denne studien da funnene tyder på at fysisk fungering har sammenheng med fungering i skole og barnehage, sosial fungering, psykososial fungering og den totale livskvaliteten.

Strength and Difficulties Questionnaire supplerer resultatene fra PedsQL, og viser at det er sammenheng mellom barns følelsesmessige og atferdsmessige symptomer og livskvalitet. Funnene antyder at en øking i følelsesmessige og atferdsmessige symptomer vil føre til redusert livskvalitet, eller motsatt. Resultatene poengterer hvilken effekt slike vansker kan ha på den totale livskvaliteten, og vi kan argumentere at resultatene fra SDQ hjelper oss å forstå og belyse livskvalitet i et bredere perspektiv enn bare PedsQL alene. Resultatet i denne studien antyder at totale vansker målt med SDQ ligger innenfor normalområdet, men derimot noe høyere enn hva som blir rapportert i andre populasjonsstudier i Norge (Van Roy et al., 2006; Sagatun et al.,

2007; Rønning et al., 2004). Ettersom Cronbach's Alfa verdien på dette måleinstrumentet ikke var tilfredsstillende, tar jeg avstand fra å fortolke og analysere resultatene fra SDQ mer enn dette.

Videre identifiseres det en sammenheng mellom barnets livskvalitet og foreldres livstilfredshet. Korrelasjonsanalysen (Spearman's  $r_s$ ) viser til dels sterke og signifikante sammenhenger mellom flere av indeksene. Resultatene antyder at det er noen sammenhenger mellom foreldrenes livskvalitet og barnets livskvalitet, som kan tolkes slik at når livskvalitet hos foreldre økes, påvirkes livskvalitet hos barnet. Resultatene antyder at spesielt foresattes tilfredshet med miljø hadde sammenheng med barnets fungering i skole og barnehage, samt deres psykososiale helse. Det kan tolkes slik at de forutsetningene hjemme i noe grad påvirker barnets fungering i skole/barnehage og deres psykososiale helse. Ettersom dette er en deskriptiv studie er det viktig å poengtere at andre faktorer som vi ikke har kontrollert for kan være av betydning i de sterke sammenhengene, og vi kan derfor ikke si med sikkerhet at de identifiserte korrelasjonene er valide.

### **Hvilke faktorer har sterk sammenheng med barnets fungering i skole og barnehage?**

Resultatene i denne studien viser at det er sammenheng mellom alle elementene av livskvalitet hos barnet og barnets funksjon i skole eller barnehage. Særlig barnets psykososiale helse og funksjon, i tillegg til barnets sosiale fungering viser en sterk sammenheng med skole/barnehage- funksjon. Funnene i denne studien kan vise at det sosiale og psykososiale miljøet kan enten legge til rette for utvikling og læring, eller forstyrre utviklingsprosesser og medføre negative opplevelser, i lys av 'selvbestemmelsesteorien' (Deci og Ryan, 2000a). Når tilfredsstillelse av behov er truet, vil trivsel svekkes. Resultatene har tidligere vist at flere elementer i livskvalitet kan tolkes som redusert eller ikke optimal, særlig for jentegruppen og ungdomsgruppen. Dette kan i lys av selvbestemmelsesteorien assosieres med at ikke alle behov hos barna i denne studien er tilfredsstillt, og derfor vil skoletrivsel bli svekket (Deci og Ryan, 2000b). I lys av selvbestemmelsesteorien er det viktig at skolen og barnehagen understøtter behov for tilhørighet, medbestemmelse og kompetanse gjennom læringsmiljøet.

Funnene i studien viser også at det er en moderat sammenheng mellom registrerte emosjonelle og atferdsmessige symptomer, og barnas fungering i skole og barnehage. Tilstandene som beskrevet i kap. 2.1 viser til en rekke utfordringer som kan være assosiert med ulike kroppslige

kjønnsvariasjoner. Vi kan spekulere i at en økt rapportering av opplevde emosjonelle og atferdsmessige symptomer, vil kunne påvirke tilfredshet og funksjon i barnehage og skole. Både på grunn av kjønnskarakteristika eller psykologiske utfordringer knyttet til utseende og kjønn, så vel som kognitive utfordringer som direkte knyttes til læringsevne, eller atferdsmessige symptomer som nedsatt konsentrasjon og umodenhet. Flere studier viser til mobbing og diskriminering som avgjørende faktor for skolelivstfredshet. Denne studien har ikke identifisert funn spesifikt knyttet til dette, da den sosiale indeksen er den som er skåret høyest i alle aldersgrupper. Imidlertid viser ungdomsgruppen redusert psykososial fungering, som mulig kan knyttes til mobbing, stigmatisering eller opplevd diskriminering, men det kan ikke konkluderes.

## 5.2 Studiens begrensninger

Ettersom dette er en deskriptiv studie som ønsker å undersøke fenomenet i den tilstanden det er, reduserer dette muligheten til å trekke kausale slutninger (*indre validitet*) og i hvilken grad vi kan si at resultatene er generaliserbare (*ytre validitet*) til resten av DSD-gruppen.

I forhold til indre validitet er det viktig å nevne retningsproblemet. Altså at de samvariasjonene som er belyst i denne oppgaven ikke kan fortelle noe om årsaken til sammenhengen mellom to variabler. Vi kan altså ikke si med sikkerhet hvilken variabel som er den påvirkende variabelen (Kleven, 2002, s. 269). Med hensyn til dette har jeg ofte inkludert alternative tolkninger i resultatene. Særlig i samvariasjonen mellom SDQ og livskvalitet hos barnet, vi vet ikke om det er atferdsmessige og emosjonelle symptomer som påvirker livskvaliteten, eller om det er livskvaliteten som påvirker økt grad av atferdsmessige og emosjonelle symptomer. Eller om det er en tredjevariabel som ikke er med i undersøkelsen i det hele tatt som påvirker resultatet (Kleven, 2002, s. 269). I denne studien kan vi derfor ikke trekke konklusjoner om årsak fordi de resultatene som er presentert kan være forenelig med flere kausalrelasjoner (Kleven, 2002, s. 270).

I forhold til ytre validitet er utvalg og prøvestørrelse av betydning. Utvalget i denne studien betegnes som et skjønnsmessig utvalg, hvilket vil si at det er ikke er tilfeldig trukket, men systematisk utvalgt (Lund, 2002, s. 134). Dette kan styrke mulighetene for å generalisere til populasjonen, ettersom utvelgelsesprosessen var benyttet med hensikt om å skaffe et mest mulig representativt utvalg i form av for eksempel alder, kjønn og tilstander. Imidlertid var det

som nevnt i kapittel 3.4 et flertall av personer som fikk invitasjon til å delta i studien, som valgte å ikke delta. Vi kan derfor ikke si med sikkerhet at resultatene i denne studien er representativt i forhold til de som valgte å ikke delta. Uansett vil det være vanskelig å generalisere til den respektive populasjonen fordi tilstandene som er inkludert i studien ikke er ensartet eller kan behandles som like. Livskvalitet hos barn og unge med DSD-tilstander vil variere med hvor preget de er av tilstanden og hvilken tilstand de har. Dette gjenspeiles også i variasjon i resultatene.

Videre har utvalgsstørrelsen hatt betydning i forhold til muligheten til å finne betydningsfulle resultater i form av statistisk styrke («statistical power»). Antall jenter er i flertall og ungdommer er underrepresentert som begrenser analysen og tyngden i disse resultatene i form av mindre statistisk styrke.

Ettersom det var frivillig å delta i studien, kan studien være utsatt for såkalt ‘selv-seleksjonsbias’, som vil si at frivillige deltakere i en studie ofte skiller seg fra dem som ikke takker ja til en slik deltakelse og vi vet derfor ikke hvor representativt resultatet er for generalisering til DSD-gruppen. Videre er «researcher bias» (Maxwell, 2013, s. 27), en type skjevhet å være oppmerksom på. Hvor forskeren vektlegger hvilke faktorer som skal undersøkes, som kan gå på bekostning av andre funn, for eksempel ved å kun belyse statistiske analyser som er hensiktsmessig for å besvare en hypotese som du selv ønsker forsvare. For å ta hensyn til ‘researcher bias’ har dataene blitt presentert i sin helhet med deskriptiv statistikk og valg av analyser representerer formål om å belyse problemstillingen.

Jeg har også tidligere nevnt «social desirability bias» som en mulig trussel, men ettersom det ikke var noen observatør til stede samt at det var frivillig å delta ser jeg denne trusselen som minimal. Imidlertid kan det ha vært en ulempe at spørreskjemaene ble besvart uten observatør. Dataene er preget av manglende verdier, vi vet ikke hvorfor enkelte spørsmål ikke er besvart, og metoden for å håndtere slike manglende verdier kan også svekke gyldighet i resultatene. Det samme angår ekstreme punkter, det var særlig ett ekstremt punkt som ble filtrert bort i denne studien, fordi det hadde såpass stor innvirkning i analysene. Jeg har derfor vist til mine valg rundt håndtering av manglende verdier og uteliggere gjennom analysen, samt inkludert boxplot og histogram i vedlegg.

I forhold til studiens generelle validitet er den største begrensningen at informantene ikke er barna selv, men foreldrene til barna. Vi kan derfor ikke si med sikkerhet at foreldrenes oppfattelse av barnas livskvalitet stemmer overens med det barna selv opplever. Studier som er belyst tidligere viser at samsvar mellom foreldre-rapport og selv-rapport er variert. Imidlertid kan det oppstå flere etiske problemstillinger dersom denne studien skulle inkludert barna selv. Enkelt sagt kan denne studien ikke være en «ekte representasjon» av barnets livskvalitet, men allikevel inneholder studien viktig informasjon om foreldrenes oppfattelse av barns livskvalitet. Vi kan også se en likhet mellom funn i denne studien og tidligere forskning, som styrker oppgaven.

Med hensyn til begrensningene vil funnene i denne studien ikke være generaliserbare og tolkning av resultatene er gjort med forsiktighet, særlig fordi vi ikke kan forklare kausale forhold. Denne studien er likevel en av de første norske undersøkelsene på helserelatert livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling og gir forhåpentligvis bevis for at ulike variasjoner av kjønn påvirker flere domener av livskvalitet og at disse barna ikke bør utelukkes fra fremtidige studier.

### **5.3 Implikasjoner for videre forskning**

Dette punktet knyttes til det som nevnes innledningsvis, nemlig hvordan barn og unge med DSD-tilstander blir møtt i barnehage og skole. På bakgrunn av funnene i denne studien og funn i andre studier ser det ut til at det er grunnlag for å si at det er behov for mer forskning knyttet til variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i utdanningssektoren. Fremtidige studier bør sikte på større utvalg for å kunne vurdere forhold mellom variabler på en mer representativ måte. Longitudinelle studier kan være hensiktsmessig med særlig tanke på at funn indikerer at ungdomsårene er sårbare, slik at en får kartlagt endring og utvikling over tid. Videre kan det nyttig å inkludere både foreldre og barn i fremtidige studier for å også få frem barnas perspektiv. En annen metodisk tilnærming, som for eksempel en tverr-snitt-studie kan være hensiktsmessig i problemstillinger som denne, for å få mer dybde til de aktuelle spørsmålene og hypotesene ved å inkludere både intervju og spørreundersøkelse.

## 6 Konklusjon

God helse og livskvalitet er prioritert i dagens samfunn, dette gjenspeiles i Regjeringens Stortingsmeldinger og handlingsplaner, i tillegg til fagfornyelsen i læreplanen. I denne studien har vi sett at det er flere årsaker til å måle livskvalitet og skoletilfredshet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. Årsakene er knyttet til både forskning og funn i denne studien, som antyder at tilfredshet knyttet til både psykiske, sosiale, emosjonelle, fysiske og kognitive aspekter for denne gruppen er utsatt og i større risiko for skjevutvikling. Forskningsspørsmålene belyser at foreldrenes vurdering av livskvalitet hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling kan tolkes som nedsatt. Foreldrenes vurderinger belyser at særlig barns emosjonelle fungering og fungering i barnehage og skole kan være noe som er verdt å være oppmerksom på. Resultatene i denne studien kan ikke forklare kausale relasjoner, men basert på studiens funn og tidligere forskning ser det ut til at en DSD-tilstander eller diagnoser vil prege livskvalitet, psykososial helse og fungering i skole og barnehage.

Hvis vi skal trekke en konklusjon fra funnene som er blitt presentert om livskvalitet, skoletrivsel og psykososial helse hos barn med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling, er det at effekten av tilstanden er varierende, også i forhold til av kjønn og alder. Derfor ser vi at resultatene er varierende og preget av usikkerhet. Foreldrenes rapportering gjenspeiler forskning som belyser at utfordringer knyttet til de ulike tilstandene og hvordan tilstanden oppleves varierer. Dette viser at det er større behov for å kartlegge behov og risikofaktorer for å ivareta DSD-gruppen i barnehage og skole. Alle elever har rett til et godt fysisk og psykososialt miljø som fremmer helse, trivsel og læring. Dette ansvaret innebærer at skolen må sikre et læringsmiljø som fremmer helse, livskvalitet og læring, så vel som forebygging av mentale og somatiske utfordringer. Det er verdt å reflektere rundt hvordan skal vi sikre trivsel, mestring og god livskvalitet i skolen dersom vi ikke har informasjon om de ulike behovene hos elever med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. Studien belyser at livskvalitet hos barn og unge med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling er påvirket av en rekke faktorer, både på miljø- og individ nivå. Imidlertid er kanskje de basale behovene og påvirkningsfaktorene av en annen art enn hos barn uten slike tilstander, på grunn av deres forskjeller fra andre barn og det at forskning i stor grad viser at de er mer utsatt for mobbing, stigmatisering og diskriminering.

For å forstå barnas trivsel i skole og barnehage er det viktig å bruke et helhetlig perspektiv som belyser betydning av samspillet mellom miljø og individ. Dette bør inkludere en undersøkelse

av miljøfaktorers betydning for trivsel i skolen. I denne studien har Bronfenbrenners utviklingsøkologiske teori blitt brukt for å illustrere hvordan samfunnsfaktorer og miljøfaktorer har betydning for livskvalitet, læring og utvikling. I tillegg til selvbestemmelsesteori som understreker viktigheten av å få dekt basale behov for å legge forutsetning for læring og utvikling. Det er sannsynlig at hvis vi skal ha muligheten til å forstå effekten av å ha variasjon i kroppslig kjønnsutvikling i skolen, så må vi ha en bredere kunnskapsbase om slike tilstander, og identifisere utfordringer på individ- og systemnivå. Forskning vektlegger behovet for et dyktig flerfaglig team og tverrfaglig samarbeid for å styrke elev-gruppen som har ulike kjønnsvariasjoner, så vel et behov for økt kunnskap. Studier anbefaler å innføre tematikken som en del av pensum på skolen og i lærerutdanningen. Utover hvilke positive ringvirkninger kompetanseøkning blant fagfolk kan ha for barn med DSD-tilstander, kan det også berike vår forståelse av kjønn som et fenomen av sosialt konstrukt der vi angir hva som er 'normalt' og ikke. Ved å utfordre den snevre og tradisjonelle holdningen til kjønn viser vi større grad av inkludering og likestilling, som trolig vil ha innvirkning på barns livskvalitet og trivsel i skolen.

## 7 Referanser

- Adelman, M., & Woods, K. (2006). Identification without intervention: Transforming anti-LGBTQ school climate. *Journal of Poverty*, 10(2), 5-26.
- Ali, S., Macqueen, Z., Gardner, M., Xin, Y., Kyrikao, A., Mason, A., Shaikh, G., Wong, S., Sandberg, D. & Ahmed, S. (2020). Parent-reported outcomes in young children with disorders/differences of sex development. *International Journal of Pediatric Endocrinology* 2020(3). DOI: <https://doi.org/10.1186/s13633-020-0073-x>
- Amaral, R. C., Inacio, M., Brito, V. N., Bachega, T. A., Domenice, S. et al. (2015). Quality of life of patients with 46,XX and 46,XY disorders of sex development. *Clinical Endocrinology*, 82(2), 159-164.
- Amnesty International (2018) Its Intersex Awareness Day – here are 5 myths we need to shatter. Hentet fra: <https://www.amnesty.org/en/latest/news/2018/10/its-intersex-awareness-day-here-are-5-myths-we-need-to-shatter/>
- Andersson, M., Doroszkiewicz, M., Arfwidsson, C., Abrahamsson, K., & Holmedal, G. (2011). Hypospadias repair with tubularized incised plate: Does the obstructive flow pattern resolve spontaneously? *Journal of Pediatric Urology*, 7(4), 441-445. DOI: 10.1016/j.jpuro.2010.05.006
- Bakken, A. (2017). *Ungdata. Nasjonale resultater 2017*, NOVA Rapport 10/17. Oslo: NOVA. Hentet fra: <http://www.hioa.no/Om-HiOA/Senter-for-velferds-og-arbeidslivsforskning/NOVA/Publikasjoner/Rapporter/2017/Ungdata-2017>
- Barn- og likestillingsdepartementet (2017) *Trygghet, mangfold, åpenhet*. Regjeringens handlingsplan mot diskriminering på grunn av seksuell orientering, kjønnsidentitet og kjønnsuttrykk. (Handlingsplan 2017-2020). Hentet fra: [https://www.regjeringen.no/contentassets/6e1a2af163274201978270d48bf4dfbe/lhbtihandlingsplan\\_web.pdf](https://www.regjeringen.no/contentassets/6e1a2af163274201978270d48bf4dfbe/lhbtihandlingsplan_web.pdf)
- Barne-, ungdoms- og familiedirektoratet (2017) Variasjon i kroppslig kjønnsutvikling. Hentet fra: [https://bufdir.no/Statistikk\\_og\\_analyse/lhbtqi/Intersex/](https://bufdir.no/Statistikk_og_analyse/lhbtqi/Intersex/)



- Barstad, A. (2014). *Levekår Og Livskvalitet: Vitenskapen Om Hvordan Vi Har Det*. Oslo: Cappelen Damm akademisk.
- Batista, R. L., Ramos, R. M., Almeida G., Nathalia L. R., Ferrari, M. T. M., Elias, F. M., Rodrigues, A. D. S., Nishi, M. Y., Silva, J. M., Costa, E. M., Domenice, S. & Mendoca, B. B. (2020) SUN-078 Clinical, Hormonal, Psychosexual Aspects, Gonadal Tumors and Genetic Background of an Androgen Insensitivity Syndrome Cohort. *Journal of the Endocrine Society*, 4(1). **DOI:** 10.1210/jendso/bvaa046.1717
- Ben-Arieh, A, Casas, F., Frønes, I. & Korbin, J. (2014). *Multifaceted Concept of Child Well-Being*. s. 1-27 in *Handbook of Child Well-Being*: Springer. **DOI:** [https://doi-org.ezproxy.uio.no/10.1007/978-90-481-9063-8\\_134](https://doi-org.ezproxy.uio.no/10.1007/978-90-481-9063-8_134)
- Bradshaw, J. & Richardson, D. (2009). An Index of Child Well-Being in Europe. *Child Indicators Research* 2(3):319–51. **DOI:** 10.1007/s12187-009-9037-7.
- Bronfenbrenner, U. (1979). *Ecology of Human Development: Experiments by Nature and Design*. USA: Harvard University Press.
- Bukowski, W., Li, K., Dirks, M., & Bouffard, T. (2012). Developmental Science and the Study of Successful Development. *International Journal of Developmental Science*, 6(1-2), 57-60. **DOI:** 10.3233/DEV-2012-11092
- Bukowski, W., McCauley, E., & Mazur, T. (2015). Disorders of Sex Development (DSD): Peer Relations and Psychosocial Well-Being. *Hormone and metabolic research*, 47(5), 357-360. **DOI:** 10.1055/s-0035-1549884
- Carel, J. C., Elie, C., Ecosse, E., Tauber, M., Leger, J., Carbol, S., Nicolino, M., Brauner, R., Chaussain, J. & Coste, J. (2006). Self-esteem and social adjustment in young women with Turner syndrome--influence of pubertal management and sexuality: Population-based cohort study. *The Journal of Clinical Endocrinology and Metabolism*, 91(8), 2972-2979.

- Clausen, T. H., & Johansen, V. (2012). Chronbachs alfa. I: T. H. Clausen (red.). *Kvantitativ analyse med SPSS. En praktisk innføring i kvantitative analyseteknikker* (ss. 268-277). Bergen: Fagbokforlaget.
- Cragg, S. J., & Lafreniere, K. D. (2010). Effects of turner syndrome on women's self-esteem and body image. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, 22, 433–445.  
**DOI** : <https://doi-org.ezproxy.uio.no/10.1007/s10882-009-9178-0>
- Crawford, J. M., Warne, G., Grover, S., Southwell, B. R., Hutson, J. M. (2009) Results from a pediatric surgical centre justify early intervention in disorders of sex development. *Journal of Pediatric Surgery*, 44(2), 413-416. **DOI**: 10.1016/j.jpedsurg.2008.10.101
- Cumming, G. & Calin-Jageman, R. (2017) *Introduction to the new statistics, estimation, open science, & Beyond*. New York: Routledge
- Darj, F. og H. Nathoorst-Böös, (2008) År du kille eller tjej? - En intervjustudie om unga transpersoners livsvillkor. Sverige: RFSL Ungdom.
- De nasjonale forskningsetiske komiteene (2015) *Hva er forskningsetikk?* Hentet fra: <https://www.etikkom.no/hvem-er-vi-og-hva-gjor-vi/hvem-er-vi-og-hva-gjor-vi/hva-er-forskningsetikk/>
- Diseth T. H. (2008). Barn født med uklare kjønnskarakteristika [Children born with ambiguous genitalia]. *Tidsskrift for den Norske lægeforening : tidsskrift for praktisk medicin, ny række*, 128(5), 576–580. Hentet fra: <https://tidsskriftet.no/2008/02/tema-andrologi/barn-fodt-med-uklare-kjonnskarakteristika>
- Eidevald, C. (2009). *Det finns inga tjejbestämmare: Att förstå kön som position i förskolans vardagsrutiner och lek*. Jönköping University.
- Eikemo, T. A. & Clausen, T. H. (Red) (2012) *Kvantitativ analyse med SPSS – en praktisk innføring i kvantitative analyseteknikker*. (2. utg.) Trondheim: Tapir Akademisk Forlag

- Elstad, J. I. & Pedersen A. W. (2012). The Impact of Relative Poverty on Norwegian Adolescents' Subjective Health: A Causal Analysis with Propensity Score Matching. *International journal of environmental research and public health* 9(12):4715–31. **DOI:** 10.3390/ijerph9124715
- Ernst, M. E., Sandberg, D. E., Keegan, C., Quint, E. H., Lossie, A. C., & Yashar, B. M. (2016). The lived experience of MRKH: Sharing health information with peers. *Journal of Pediatric and Adolescent Gynecology*, 29, 154–158. **DOI:** 10.1016/j.jpag.2015.09.009
- Evensen, M. & Løvgren, M. (2018) *Studier av velferd og livskvalitet hos barn* (NOVA notat nr 5/18). Hentet fra: <http://www.hioa.no/Om-OsloMet/Senter-for-velferds-og-arbeidslivsforskning/NOVA/Publikasjoner/Notat/2018/Studier-av-velferd-og-livskvalitet-hos-barn>
- Falhammar, H., Butwicka, A., Landen, M., Lichtenstein, P., Nordenskjold, A., Nordenstrom, A., & Frisen, L. (2014). Increased psychiatric morbidity in men with congenital adrenal hyperplasia due to 21-hydroxylase deficiency. *The Journal of Clinical Endocrinology and Metabolism*, 99(3), 554-560.
- Feragen, K. B., Heggeli, C. & Wæhre, A. (2017) Livssituasjonen for personer med variasjon I kroppslig kjønnsutvikling. Hentet fra: <https://bufdir.no/Bibliotek/Dokumentside/?docId=BUF00004919>
- Field, A. (2016) *An adventure in statistics, the reality enigma*. California: SAGE Publications
- Fjermestad, K. W., Naess, E. E., Bahr, D., & Gravholt, C. H. (2016). A 6-year Follow-up survey of health status in middle-aged women with Turner syndrome. *Journal of Clinical Endocrinology*, 85(3), 423-429. **DOI.** 10.1111/cen.13068
- Folkehelseinstituttet (2016) Fakta om livskvalitet og trivsel. Hentet fra: <https://www.fhi.no/fp/psykiskhelse/livskvalitet-og-trivsel/livskvalitet-og-trivsel/>

- Folkehelseinstituttet (2018) Barn og unge: Livskvalitet og psykiske lidelser. I: Folkehelse rapporten - Helsetilstanden i Norge [nettdokument]. Hentet fra: <https://www.fhi.no/nettpub/hin/grupper/psykisk-helse-hos-barn-og-unge/>
- Frambu Kompetansesenter (2017) Klinefelters syndrom – Læring og utvikling. Hentet fra: <https://frambu.no/diagnosebeskrivelse/tilrettelegging-for-utvikling-og-laering-klinefelters-syndrom/?c=159&d=743>
- Frambu Kompetansesenter (2019) Medisinsk beskrivelse av Klinefelters syndrom. Hentet fra: <https://frambu.no/diagnosebeskrivelse/medisinsk-beskrivelse-klinefelters-syndrom/?c=159&d=743>
- Friborg, O. (2010) Klassisk testteori og utvikling av spørreinstrumenter. I: Martinussen, M. (Red.). *Kvantitativ forskningsmetodologi i samfunns- og helsefag*. (s. 15-55). Bergen: Fagbokforlaget
- Funk, S. & Funk, J. (2017). From a Pedagogy of Vulnerability to a Pedagogy of Resilience: A Case Study of the Youth and Gender in Media Project. *Critical Questions in Education*, 8(3), 297-321.
- Furlong, M. J., Gilman, R., & Huebner, E. S. (2014). *Handbook of Positive Psychology in Schools*. (2. Utg.). New York: Routledge.
- Garralda, M, E., Yates, P. & Higginson, I. (2000). Child and adolescent mental health service use: HoNOSCA as an outcome measure. *Br J Psychiatry* 177, 52–58  
**DOI:** 10.1192/bjp.177.1.52
- Gilman, R. & Huebner S. (2003). A Review of Life Satisfaction Research with Children and Adolescents. *School Psychology Quarterly* 18(2):192.  
**DOI:** 10.1521/scpq.18.2.192.21858
- Goodman R., Ford T., Simmons H., Gatward R. & Meltzer H. (2000). Using the Strengths and Difficulties Questionnaire (SDQ) to screen for child psychiatric disorders in a

community sample. *British Journal of Psychiatry*, (177), 534-539.

**DOI:** 10.1192/bjp.177.6.534

Goodman, A. & Goodman, R. (2009) Strengths and Difficulties Questionnaire as a Dimensional Measure of Child Mental Health. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 48(4), 400-403.

**DOI:** 10.1097/CHI.0b013e3181985068

Goodman, A. & Goodman, R. (2009). Strengths and difficulties questionnaire as a dimensional measure of child mental health. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 48(4), 400- 403. **DOI:**

10.1097/CHI.0b013e3181985068

Goodman, A., Robert, J. & Smith J. (2011). The Long Shadow Cast by Childhood Physical and Mental Problems on Adult Life. *Proceedings of the National Academy of Sciences* 108(15):6032–37. **DOI:** 10.1073/pnas.1016970108

Goodman, R. (2001). Psychometric Properties of the Strengths and Difficulties Questionnaire. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 40(11), 1337-1345. **DOI:** 10.1097/00004583-200111000-00015

Graham, J. W. (2009). Missing data analysis: Making it work in the real world. *The Annual review of psychology*, 60(1), 549-76. **DOI:** 10.1146/annurev.psych.58.110405.085530

Grant J.M., Mottett, L.A., Tanis, J.T., Harrison, J., Herman, J.L., & Kiesling, M. (2011) Injustice at every turn: A report of the national transgender discrimination survey. Washington: *National Center for Transgender Equality and National Gay and Lesbian Task Force*.

Grossman, A.H. og D’Augelli, R. (2006) Transgender youth: invisible and vulnerable. *Journal of Homosexuality*, 51(1), 111-128. **DOI:** 10.1300/J082v51n01\_06

- Groth, K. A., Skakkebæk, A., Høst, C., Gravholt, C. H. & Bojesen A. (2012) Klinefelter Syndrome – A Clinical Update. *The Journal of Clinical Endocrinology & Metabolism*, 98(1), 20–30.
- Helgeland, H., Van Roy, B., Sandvik, L., Markestad, T. & Kristensen, H. (2011). Paediatric functional abdominal pain: Significance of child and maternal health a prospective study. *Acta Paediatrica*, 100(11), 1461- 1467. **DOI:** <http://dx.doi.org/10.1111/j.1651-2227.2011.02349.x>
- Helse- og omsorgsdepartementet (2014) *Folkehelsemeldingen – mestring og muligheter* (Meld. St. 19 (2014-2015)). Hentet fra: <https://www.regjeringen.no/no/dokumenter/meld.-st.-19-2014-2015/id2402807/>
- Helse- og omsorgsdepartementet (2019) *Folkehelsemeldinga – Gode liv i eit trygt samfunn*. (Meld. St. 19 (2018-2019)) Hentet fra: <https://www.regjeringen.no/no/dokumenter/meld.-st.-19-20182019/id2639770/>
- Helsedirektoratet (2015) *Trivsel i skolen*. (Rundskriv: IS-2345). Hentet fra: [https://www.helsedirektoratet.no/rapporter/trivsel-i-skolen/Trivsel%20i%20skolen.pdf/\\_attachment/inline/9e76ad2b-14eb-4c5f-bf8b-e157f5efcc06:176ea3b766b3d06407dbd9395c3b1776682c5ab7/Trivsel%20i%20skolen.pdf](https://www.helsedirektoratet.no/rapporter/trivsel-i-skolen/Trivsel%20i%20skolen.pdf/_attachment/inline/9e76ad2b-14eb-4c5f-bf8b-e157f5efcc06:176ea3b766b3d06407dbd9395c3b1776682c5ab7/Trivsel%20i%20skolen.pdf)
- Herlihy, A. S., McLachlan, R. I., Gillam, L., Cock, M. L., Collins, V., & Halliday, J. L. (2011). The psychosocial impact of Klinefelter syndrome and factors influencing quality of life. *Genetics in Medicine*, 13, 632–642. **DOI:** <https://doi-org.ezproxy.uio.no/10.1097/GIM.0b013e3182136d19>
- Holbrook, A. L., Green, M. C. & Krosnick, J. A. (2003). Telephone versus Face-to-Face Interviewing of National Probability Samples with Long Questionnaires: Comparisons of Respondent Satisficing and Social Desirability Response Bias. *The Public Opinion Quarterly*, 67(1), 79-125. **DOI:** <https://doi.org/10.1086/346010>
- Holen, S., Waaktaar, T., Lervag, A. & Ystgaard, M. (2012). The effectiveness of a universal school-based programme on coping and mental health: A randomised, controlled study

- of Zippy's Friends. *Educational Psychology*, 32(5), 657-677. **DOI:**  
<http://dx.doi.org/10.1080/01443410.2012.686152>
- Hsiao, Y., Wu, C., & Yao, G. (2014). Convergent and Discriminant Validity of the WHOQOL-BREF Using a Multitrait-Multimethod Approach. *Social Indicators Research*, 116(3), 971-988. **DOI:** 10.1007/s11205-013-0313-z
- Hughes, I. A. & Deeb, A. (2006) Androgen resistance. *Best Practice & Research Clinical Endocrinology & Metabolism*, 20(4), 577-598. **DOI:** 10.1016/j.beem.2006.11.003
- Hughes, I., Houk, C., Ahmed, S., & Lee, P. (2006). Consensus statement on management of intersex disorders. *Archives of Disease in Childhood*, 91(7), 554-563.  
**DOI:** 10.1136/adc.2006.098319
- Johannessen, A., Tufte, P. A., & Kristoffersen, L. (2010). *Introduksjon til samfunnsvitenskapelig metode* (4. Utg.). Oslo: Abstrakt forlag.
- Jones, T. (2016). The needs of students with intersex variations. *Sex Education*, 16(6), 602-618. **DOI:** 10.1080/14681811.2016.1149808
- Jürgensen, M., Lux, A., Wien, S., Kleinemeier, B., Hiort, E., & Thyen, O. (2014). Health-related quality of life in children with disorders of sex development (DSD). *European Journal of Pediatrics*, 173(7), 893-903. **DOI:** 10.1007/s00431-014-2264-z
- Kanhere, M., Fuqua, J., Rink, R., Houk, C., Mauger, D., & Lee, P. A. (2015). Psychosexual development and quality of life outcomes in females with congenital adrenal hyperplasia. *International Journal of Pediatric Endocrinology*, 2015, 21. **DOI:**  
<https://doi.org/10.1186/s13633-015-0017-z>
- Karkazis, K. (2008). *Fixing sex: intersex medical authority and lived experience*. Duke University Press: Durham
- Kennedy, N. og M. Hellen (2010). Transgender children: more than a theoretical challenge. *Graduate Journal of Social Science*, 2010(7). Hentet fra: <https://www.ncgs.org/wp->

<content/uploads/2017/11/Transgender-Children-%E2%80%93-More-than-a-Theoretical-Challenge.pdf>

- Kleinemeier, E., Jurgensen, M., Lux, A., Widenka, P. M., & Thyen, U. (2010). Psychological adjustment and sexual development of adolescents with disorders of sex development. *Journal of Adolescent Health, 47*(5), 463-471. **DOI:** 10.1016/j.jadohealth.2010.03.007
- Kleven, T. A. (2002a). Begrepsoperasjonalisering, I: Thorleif Lund (red.). *Innføring i forskningsmetodologi*. Oslo: Unipub. s 141 – 183
- Kleven, T. A. (2002b). Ikke eksperimentelle design. I: T. Lund (red.). *Innføring i forskningsmetodologi*. Oslo: Unipub forlag. s. 265 - 286.
- Kornør, H. & Heyerdahl, S. (2017). Måleegenskaper ved den norske versjonen av Strengths and Difficulties Questionnaire, foreldrerapport (SDQ-P). *PsykTestBarn, 1:1*. **DOI:** 10.21337/0048
- Kosciw, J.G., Greytak, E.A., Palmer, N.A. & Boesen, M.J. (2014). *The national school climate survey: The experiences of lesbian, gay, bisexual, and transgender youth in our nation's schools*. New York: Gay, Lesbian, and Straight Education Network (GLSEN).
- Kruse, S., Schneeberg, A. & Brussoni, M. (2014) Construct validity and impact of mode of administration of the PedsQL™ among a pediatric injury population. *Health and Quality of Life Outcomes 12*(1) 168. **DOI:** <https://doi.org/10.1186/s12955-014-0168-2>
- Kunnskapsdepartementet. (2008). *Kvalitet i skolen*. (St. Meld. 30 (2007-2008)). Hentet fra: <https://www.regjeringen.no/no/dokumenter/stmeld-nr-31-2007-2008-/id516853/>
- WHOQOL Group (1994). Development of the WHOQOL: Rationale and current status. *International Journal of Mental Health, 23*(3), 24–56.  
**DOI:** 10.1080/00207411.1994.11449286



- Lie, S. (2010) Måling av kunnskap og holdninger i et krysskulturelt perspektiv. I: Martiunussen, M. (Red.). *Kvantitativ forskningsmetodologi i samfunns- og helsefag*. (s. 121-150). Bergen: Fagbokforlaget
- Luhmann, S. F. (1998). Queering/querying pedagogy? Or, pedagogy is a pretty queer thing. *Queer Theory in Education* (365-73). Hentet fra: <https://www.semanticscholar.org/paper/Queering-%2F-Querying-Pedagogy-Or-%2C-Pedagogy-Is-a-Luhmann/f7893c95e540f1f2c10981adee807e2b56cec767>
- Lund, T. (2002). *Innføring i forskningsmetodologi*. Oslo: Unipub.
- Maxwell, J. (2013). *Qualitative research design: An interactive approach..* (3. utg.) Los Angeles: Sage.
- McCarthy, K., & Bondy, C. (2008). Turner syndrome in childhood and adolescence. *Expert Review of Endocrinology & Metabolism*, 3(6), 771-775.  
**DOI:** 10.1586/17446651.3.6.771
- McCauley, E. L., Ross, J., Kushner, H., & Cutler, G. (1995). Self-Esteem and Behavior in Girls with Turner Syndrome. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 16(2), 82-88. Hentet fra: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/7790519/>
- McCrory, C. & Layte, R. (2012) Testing competing models of the Strengths and Difficulties Questionnaire's (SDQ) factor structure for the parent-informant instrument. *Personality and Individual Differences*, 52(8), 882-887.  
**DOI:** 10.1016/j.paid.2012.02.011
- Mieloo, C. Raat, H., van Oort, F., Bevaart, F., Vogel, I., Donker, M. & Jansen, W. (2012) Validity and reliability of the Strengths and Difficulties Questionnaire in 5-6 year olds: Differences by gender or by parental education? *PLoS ONE*, 7(5), e36805. **DOI:** 10.1371/journal.pone.0036805
- Mittelmark, M. B. (2012). From associations to process. I: Wold B. & Samdal, O. (Red.). *An ecological perspective on health promotion systems, settings and social processes* (s. 11-16). London: Bentham Science Publishers.

- Mondaini, N., Ponchiotti, R., Bonafè, M., Biscioni, S., Di Loro, F., Agostini, P., Salvestrini, F. & Rizzo, M. (2002). Hypospadias: Incidence and Effects on Psychosexual Development as Evaluated with the Minnesota Multiphasic Personality Inventory Test in a Sample of 11,649 Young Italian Men. *Urologia Internationalis*, 68(2), 81-85. **DOI:** 10.1159/000048423
- Mureau, M., Slijper, F., Slob, A., & Verhulst, F. (1997). Psychosocial functioning of children, adolescents, and adults following hypospadias surgery: A comparative study. *Journal of Pediatric Psychology*, 22(3), 371-87. **DOI:** <https://doi.org/10.1093/jpepsy/22.3.371>
- Nermoen, I., Husebye, E., Myhre, A., & Løvås, K. (2017). Classic congenital adrenal hyperplasia. *Tidsskrift for Den Norske legeforening*, 137(7), 540-543. Hentet fra: <https://tidsskriftet.no/en/2017/04/klinisk-oversikt/classic-congenital-adrenal-hyperplasia>
- Neuman, L. W. (2006) *Social research methods: qualitative and quantitative approaches* (6. utg.). Boston: Pearson International Edition.
- Nordenström, A. (2015). Psychosocial Factors in Disorders of Sex Development in a Long-Term Perspective: What Clinical Opportunities are there to Intervene? *Hormone and Metabolic Research* 47(5), 351-356. **DOI:** 10.1055/s-0034-1398562
- Nordenstrom, A., Frisen, L., Falhammar, H., Filipsson, H., Holmdahl, G., Janson, P. O., Thorén M., Hagenfeldt, K. & Nordenskjöld A. (2010). Sexual function and surgical outcome in women with congenital adrenal hyperplasia due to CYP21A2 deficiency: Clinical perspective and the patients' perception. *The Journal of Clinical Endocrinology and Metabolism*, 95(8), 3633-3640.
- Norušis, M. (2011). *IBM SPSS statistics 19 guide to data analysis*. Upper Saddle River, N.J: Prentice Hall.
- NOU 2019: 19 (2019). *Jenterom, gutterom og mulighetsrom – Likestillingsutfordringer blant barn og unge*. Norges offentlige utredninger 2019. Hentet fra: <https://www.regjeringen.no/contentassets/efa97f020331439a8adbb84dd90ab426/no/pdfs/nou201920190019000dddpdfs.pdf>

- Nøvik, T. S. (2000) Måling av psykiske vansker hos barn. *Tidsskrift for norsk legeforening* 2000(120), 838. Hentet fra: <https://tidsskriftet.no/2000/03/doktoravhandlinger/maling-av-psykiske-vansker-hos-barn>
- Opplæringslova (1998). *Lov om grunnskolen og den vidaragående opplæringa* (LOV-1998-07-17-61). Henter fra: [https://lovdata.no/dokument/NL/lov/1998-07-17-61/KAPITTEL\\_11#KAPITTEL\\_11](https://lovdata.no/dokument/NL/lov/1998-07-17-61/KAPITTEL_11#KAPITTEL_11)
- Østrem, S., Tholin, K. R., Nordtømme, S., Jansen, T. T., Hogsnes, H. D. & Bjar, H. (2009). *Alle teller mer: en evaluering av hvordan Rammepplan for barnehagens innhold og oppgaver blir innført, brukt og erfart*. Tønsberg: Høgskolen i Vestfold.
- Payne, E. C. & Smith, M. (2011). The Reduction of Stigma in Schools: A New Professional Development Model for Empowering Educators to Support LGBTQ Students. *Journal of LGBT Youth*, 8(2), 174-200.
- Rafferty, J. (2018) Gender Identity Development In Children. Hentet fra: <https://www.healthychildren.org/English/ages-stages/gradeschool/Pages/Gender-Identity-and-Gender-Confusion-In-Children.aspx>
- Rankin, S., Weber, G., Blumenfeld, W. & Frazer. S. (2010). 2010 State of higher education for Lesbian, Gay, Bisexual & Transgender people. Hentet fra: <https://www.campuspride.org/wp-content/uploads/campuspride2010lgbtreportsummary.pdf>
- Redd Barna (2020) LHBTI-rettigheter er også barns rettigheter. Hentet fra: [https://www.reddbarna.no/nyheter/lhbti-rettigheter-er-ogsaa-barns-rettigheter?fbclid=IwAR1P3gBNzhCavA9TUkGfWNPY6Ghugm-CFI2xekSvyCtI5\\_8q1JjabhOWgUc](https://www.reddbarna.no/nyheter/lhbti-rettigheter-er-ogsaa-barns-rettigheter?fbclid=IwAR1P3gBNzhCavA9TUkGfWNPY6Ghugm-CFI2xekSvyCtI5_8q1JjabhOWgUc)
- Redd Barna, LLH & Skeiv Ungdom (2016) Rettane til LHBTI-barn i Noreg. Vurdering og tilrådningar i lys av FN sin barnekonvensjon. Hentet fra: <https://www.reddbarna.no/nyheter/barn-som-bryter-med-normer-for-kjoenn-og-seksualitet>

- Rees, G. (2017). Children's Views on Their Lives and Well-Being: Findings from the Children's Worlds Project. Cham: *Springer International Publishing*, 155–71. DOI: <https://doi-org.ezproxy.uio.no/10.1007/978-3-319-65196-5>
- Reinfjell, T., & Jozefiak, T. (2012). Måleegenskaper ved den norske versjonen av The Pediatric Quality of Life Inventory TM, 4.0 (PedsQL). *PsykTestBarn*, 2:1.
- Reinfjell, T., Diseth, T., Veenstra, M., & Vikan, A. (2006). Measuring health-related quality of life in young adolescents: Reliability and validity in the Norwegian version of the Pediatric Quality of Life Inventory™ 4.0 (PedsQL) generic core scales. *Health and Quality of Life Outcomes*, 4(1), 61. DOI: <https://doi.org/10.1186/1477-7525-4-61>
- Ringdal, K. (2013). *Enhet og mangfold: Samfunnsvitenskapelig forskning og kvantitativ metode*. (3. utg.). Bergen: Fagbokforlaget
- Roen, K. (2019). Intersex or Diverse Sex Development: Critical Review of Psychosocial Health Care Research and Indications for Practice. *The Journal of Sex Research*, 56(4-5), 511-528. DOI: 10.1080/00224499.2019.1578331
- Ryan, R. M., & Deci, E. L. (2000a). Intrinsic and extrinsic motivations: Classic definitions and new directions. *Contemporary educational psychology*, 25(1), 54-67.
- Ryan, R. M., & Deci, E. L. (2000b). Self-determination theory and the facilitation of intrinsic motivation, social development, and wellbeing. *American Psychologist* (55), 68- 78.
- Samdal, O., Mathisen, F., Torsheim, T., Diseth, Å., Fismen, A., Larsen, T., Wold, B. & Årdal, E. (2016). *Helse Og Trivsel Blant Barn Og Unge. Resultater Fra Den Landsrepresentative Spørreundersøkelsen «Helsevaner Blant Skoleelever. En WHO-undersøkelse I Flere Land* (HEMIL-rapport 1/2016). Hentet fra: <http://bora.uib.no/handle/1956/13072>
- Sandberg D., Meyer-Bahlburg H., Hensle T., Levitt S., Kogan S. og Reda E. (2001) Psychological adaption of middle childhood boys with hypospadias after genital surgery. *Journal of Pediatric Psychology*, 26(8), 465-475. DOI: <https://doi.org/10.1093/jpepsy/26.8.465>

Sandberg, D., Gardner, M., Callens, N., & Mazur, T. (2017). Interdisciplinary care in disorders/differences of sex development (DSD): The psychosocial component of the DSD—Translational research network. *American Journal of Medical Genetics Part C: Seminars in Medical Genetics*, 175(2), 279-292. **DOI:** 10.1002/ajmg.c.31561

Sandberg, Kirsten (2016). Interkjønnbarn. *Tidsskrift for familierett, arverett og barnevernrettslige spørsmål*, 04/2016, s. 301-304

Schaeffer, N. C. & Presser, S. (2003). The Science of Asking Questions. *Annual Review of Sociology*, 29(1), 65-88. **DOI:** 10.1146/annurev.soc.29.110702.110112

Schober, J., Nordenstrom, A., Hoebeke, P., Lee, P., Houk, C. et al. (2012). Disorders of sex development: Summaries of long-term outcome studies. *Journal of Pediatric Urology*, 8(6), 616-623. **DOI:** 10.1016/j.jpuro.2012.08.005

Schönbucher, V., Weber, D., & Landolt, M. (2008). Psychosocial Adjustment, Health-Related Quality of Life, and Psychosexual Development of Boys with Hypospadias: A Systematic Review. *Journal of Pediatric Psychology*, 33(5), 520-535. **DOI:** 10.1093/jpepsy/jsm098

Selveindran, N., Syed Zakaria, S., Jalaludin, M., & Rasat, R. (2017). Quality of Life in Children with Disorders of Sex Development. *Hormone Research in Paediatrics*, 88(5), 324-330. **DOI:** 10.1007/s00431-014-2264-z

Senter for sjeldne diagnoser (2019) Medfødt binyrebarksvikt (CAH). Hentet fra:

[https://sjeldnediagnoser.no/home/sjeldnediagnoser/Medf%C3%B8dt%20binyrebarksvikt%20\(CAH\)/8674](https://sjeldnediagnoser.no/home/sjeldnediagnoser/Medf%C3%B8dt%20binyrebarksvikt%20(CAH)/8674)

Skevington, S. M., Lotfy, M., & O'Connell, K. A. (2004). The World Health Organization's WHOQOL BREF quality of life assessment: Psychometric properties and results of the international field trial: A report from the WHOQOL group. *Quality of Life Research*, 13(2), 299–310. **DOI:** 10.1023/B:QURE.0000018486.91360.00.

- Skovlund, E. (2017). When should you choose a non-parametric method? *Tidsskrift for Den Norske Laegeforening*, 137(16). **DOI:** 10.4045/tidsskr.17.0219
- Slijper, F., Drop, S., Molenaar, J. & Keizer-Schrama (1998). Long-Term Psychological Evaluation of Intersex. Children. *Archives of Sexual Behavior*, 27(2), 125-144. **DOI:** 10.1023/A:1018670129611
- Stikkelbroeck, N. M., Beerendonk, C. C., Willemsen, W. N., Schreuders-Bais, C. A., Feitz, W. F. et al. (2003). The long-term outcome of feminizing genital surgery for congenital adrenal hyperplasia: Anatomical, functional and cosmetic outcomes, psychosexual development, and satisfaction in adult female patients. *Journal of Pediatric and Adolescent Gynecology*, 16(5), 289-296. **DOI:** 10.1016/s1083-3188(03)00155-4
- Stout, S., Litvak, M., Robbins, N., & Sandberg, D. (2010). Congenital Adrenal Hyperplasia: Classification of Studies Employing Psychological Endpoints. *International Journal of Pediatric Endocrinology*, 2010(1), 191520. **DOI:** 10.1186/1687-9856-2010-191520
- Tangen, R. (2012) Elevers skolelivskvalitet. I: E. Befring & R. Tangen (Red.), *Spesialpedagogikk* (s. 151-169). Oslo: Cappelen Damm AS.
- Theunissen, Meinou H. C, Vogels, Anton G. C, De Wolff, Marianne S, & Reijneveld, Sijmen A. (2013). Characteristics of the Strengths and Difficulties Questionnaire in Preschool Children. *Pediatrics*, 131(2), 446-454. **DOI:** 10.1542/peds.2012-0089
- Treutler C. & Epkins C. (2003) Are discrepancies among child, mother, and father reports on children's behavior related to parents' psychological symptoms and aspects of parent-child relationships? *J Abnorm Child Psychol* 2003, 31:13-27. **DOI:** 10.1023/a:1021765114434.
- Turner, H. A., Mitchell, K. J., Jones, L., & Shattuck, A. (2015). Assessing the Impact of Harassment by Peers: Incident Characteristics and Outcomes in a National Sample of Youth. *Journal of School Violence*, 1(24). **DOI:** 10.1080/15388220.2015.1066257

- Utdannings- og forskningsdepartementet. (2004). *Kultur for læring*. (St. Meld. 30 (2003-2004)). Hentet fra: <https://www.regjeringen.no/no/dokumenter/stmeld-nr-030-2003-2004-/id404433/>
- Utdanningsdirektoratet (2020) *Overordnet del – verdier og prinsipper for grunnopplæringen*. Hentet fra: <https://www.udir.no/lk20/overordnet-del/>
- Van de Grift, T. C., Cohen-Kettenis, P. T., de Vries, A. L. C., & Kreukels, B. P. C. (2018). Body image and self-esteem in disorders of sex development: A European multicenter study. *Health Psychology: official journal of the Division of Health Psychology*, 37(4), 334- 343.
- Van der Meer, M., Dixon, A., & Rose, D. (2008). Parent and child agreement on reports of problem behaviour obtained from a screening questionnaire, the SDQ. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 17(8), 491-497. **DOI:** 10.1007/s00787-008-0691-y
- Van der Ros (2013) *Levekår, livssituasjon og livskvalitet for personer med kjønnsidentitetstematikk*. Likestillingscenteret. Hentet fra: <https://likestillingssenteret.no/wp-content/uploads/2016/02/Alskens-folk.pdf>
- Van Lisdonk, J. (2014) *Living with intersex/DSD: An exploratory study of the social situation of persons with intersex/DSD*. The Netherlands Institute for Social Research.
- Van Roy, B., Groholt, B., Heyerdahl, S. & Clench- Aas, J. (2010). Understanding discrepancies in parent-child reporting of emotional and behavioural problems: Effects of relational and socio- demographic factors. *BMC Psychiatry* 10(56), **DOI:** <http://dx.doi.org/10.1186/1471-244X-10-56>
- Van Roy, B., Groholt, B., Heyerdahl, S. & Clench-Aas, J. (2006). Self-reported strengths and difficulties in a large Norwegian population 10-19 years: Age and gender specific results of the extended SDQ-questionnaire. *European Child and Adolescent Psychiatry*, 15(4), 189-198. doi: 10.1007/s00787-005-0521-4

- Van Roy, B., Veenstra, M. & Clench-Aas, J. (2008). Construct validity of the five-factor Strengths and Difficulties Questionnaire (SDQ) in pre-, early, and late adolescence. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 49(12), 1304-1312. **DOI:** <http://dx.doi.org/10.1111/j.1469-7610.2008.01942.x>
- Vandendriessche, S., Baeyens, D., Van Hoecke, E., Indekeu, A., & Hoebeke, P. (2010). Body image and sexuality in adolescents after hypospadias surgery. *Journal of Pediatric Urology*, 6(1), 54-59. **DOI:** 10.1016/j.jpurol.2009.04.009
- Varni, J., Burwinkle, T., Seid, M., & Skarr, D. (2003). The PedsQL™ 4.0 as a Pediatric Population Health Measure: Feasibility, Reliability, and Validity. *Ambulatory Pediatrics*, 3(6), 329-341. **DOI:** 10.1367/1539-4409(2003)0032.0.CO
- Varni, J., Seid, M., & Kurtin, P. S. (2001). PedsQL 4.0: Reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory version 4.0 generic core scales in healthy and patient populations. *Medical care*, 39(8), 800-812. **DOI:** 10.1097/00005650-200108000-00006.
- Vilkin, E., Einhorn, L., Satyanarayana, S., Eisu, A., Kimport, K., & Flentje, A. (2020). Elementary Students' Gender Beliefs and Attitudes Following a 12-Week Arts Curriculum Focused on Gender. *Journal of LGBT Youth*, 17(1), 70-88. **DOI:** 10.1080/19361653.2019.1613282
- Wang, C., & Tian, Q. (2015). The investigation of quality of life in 87 Chinese patients with disorders of sex development. *Biomed Research International*, 2015, 342. **DOI:** <https://doi.org/10.1155/2015/342420>
- Warne, G., & Raza, L. (2008). Disorders of sex development (DSDs), their presentation and management in different cultures. *Reviews in Endocrine and Metabolic Disorders*, 9(3), 227-236. **DOI:** 10.1007/s11154-008-9084-2.
- Wold, B. (2012). Social Influence Processes on Adolescents Health Behaviours. I: B. Wold & O. Samdal (Red.), *An ecological perspective on health promotion systems, settings and social processes*, ss. 67- 77. London: Bentham Science Publishers.



World Health Organization. Division of Mental Health. (1996). WHOQOL-BREF: introduction, administration, scoring and generic version of the assessment: field trial version, December 1996. World Health Organization. Hentet fra: <https://apps.who.int/iris/handle/10665/63529>

Yao, K.-P. G. (2005). *The user's manual of the development of the WHOQOL-BREF Taiwan version (2nd ed.)*. Taipei: The WHOQOL-Taiwan Group

# Vedlegg 1. Invitasjon til deltakelse i studien



## INVITASJON TIL DELTAKELSE I FORSKNINGSTUDIE

**Til foresatte: Vil du bidra til å forbedre livssituasjonen for personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling? Delta i vår forskningsstudie!**

### BAKGRUNN OG HENSIKT

Vi er interessert i dine erfaringer og ønsker å lære mer om:

Hvordan dere og barnet har det i hverdagen

Hvordan dere og barnet opplever å bli ivaretatt av miljøet rundt dere (barnehage, skole, jobb)

Sosialt/venner/familie

Hva deres erfaringer er med helsevesenet.

Hva dere har fått av informasjon.

#### Hvorfor vil vi vite dette?

Vi håper at det vi lærer gjennom denne studien kan være med å øke kunnskapen om og forbedre livssituasjonen til personer med variasjon i kroppslig kjønnsutvikling.

#### Hva er variasjon i kroppslig kjønnsutvikling?

Dette er en samlebetegnelse som viser til de av oss som er født med variasjoner i utviklingen av kjønnshormoner, kjønnskromosomer, kjønnskjertler og/eller kjønnsorgan. Vi vet at gruppene vi ønsker å lære mer om er veldig forskjellige. Mange vil kanskje ikke kjenne seg igjen i begrepene eller beskrivelsene i denne teksten. Dette vil vi ta hensyn til i intervjusituasjonen.

#### Hvem er vi?

Vi er fagpersoner på Senter for sjeldne diagnoser (SSD) som kjenner tilstandene godt. Vi har fått i oppdrag å gjøre denne studien fra Barne-, ungdoms- og familiedirektoratet (Bufdir).

**Når kan jeg delta?** Vi er klare for å treffe deg i perioden mellom mai - august 2018.

#### Hva skjer med informasjonen jeg gir?

All informasjon du gir behandles anonymt. For å kunne øke kunnskap om dine og andres opplevelser, og hjelpe med å bedre oppfølgingen, vil vi formidle dette i en rapport som lanseres av Bufdir. Vi vil også bruke resultater i artikler til internasjonale tidsskrifter, og som en del av en masteroppgave i Interdisiplinær helseforskning ved Universitetet i Oslo.

### HVA INNEBÆRER DELTAKELSE?

#### Hva må jeg gjøre hvis jeg deltar?

- Fyll ut noen spørreskjemaer om hvordan dere har det. Disse spørreskjemaene blir sendt i posten. Du kan velge om du vil fylle de ut hjemme eller om du vil fylle de ut hos oss. Det vil ta cirka 15 minutter.

- Intervjusamtale enten hos oss (på Senter for sjeldne diagnoser ved Oslo universitetssykehus, Rikshospitalet), eller over telefon hvis dette er lettere for deg. Dette vil ta 1-2 timer.

### **Hvilken informasjon om oss skal brukes i studien?**

Hvis du ønsker å delta så kommer vi også til å registrere informasjon om barnet fra journal fra tidligere undersøkelser på sykehuset. Dette kan være informasjon om diagnose og eventuell behandling.

### **Hva må jeg gjøre hvis jeg er interessert i å være med?**

Først må du fylle ut et samtykkeskjema nederst i dette dokumentet og levere det til oss. Etterpå blir du ringt av en prosjektmedarbeider på telefon for å avtale tidspunkt for intervjuet.

## **MULIGE FORDELER OG ULEMPER**

### **Hva kan være positivt med å delta?**

Noen synes det er fint å kunne snakke om sin historie og egne opplevelser og utfordringer med noen som kjenner til tilstanden/diagnosen. Noen synes det er meningsfullt å kunne bidra med sine opplevelser og kunnskap, for på sikt å kunne forbedre sitt eget barns og andres barns fremtidige oppfølging og livssituasjon.

### **Hva kan være negativt med å delta?**

Du velger selv hva du vil dele, men noen kan synes at enkelte temaer er vanskelige å snakke om. Hvis dette skjer, så vil vi på best mulig måte ivareta deg. Intervjuet tar 1-2 timer, og tiden brukt kan oppleves som en ulempe.

## **FRIVILLIG DELTAKELSE OG MULIGHET FOR Å TREKKE SITT SAMTYKKE**

Det er selvfølgelig helt frivillig å være med i studien. Hvis du har lyst til dette så undertegner du samtykkeerklæringen på siste side og sender den til oss. Du kan når som helst og uten å oppgi noen grunn trekke samtykket. Dette vil ikke få konsekvenser for ditt barns eventuelle videre oppfølging. Hvis du velger å trekke deg fra studien, kan du kreve å få slettet innsamlede opplysninger, med mindre opplysningene allerede er inngått i analyser eller brukt i vitenskapelige publikasjoner.

## **HVA SKJER MED INFORMASJONEN?**

**All informasjon som vi får fra spørreskjemaer, samtale og journal, blir lagret aidentifisert på en sikret forskningsserver på Oslo universitetssykehus, med en kodeliste lagret separat og innelåst.** Det betyr at informasjonen du gir ikke kan knyttes til deg uten at man har denne kodelisten, som kun leder for studien har tilgang til. All informasjon blir altså lagret sikkert.

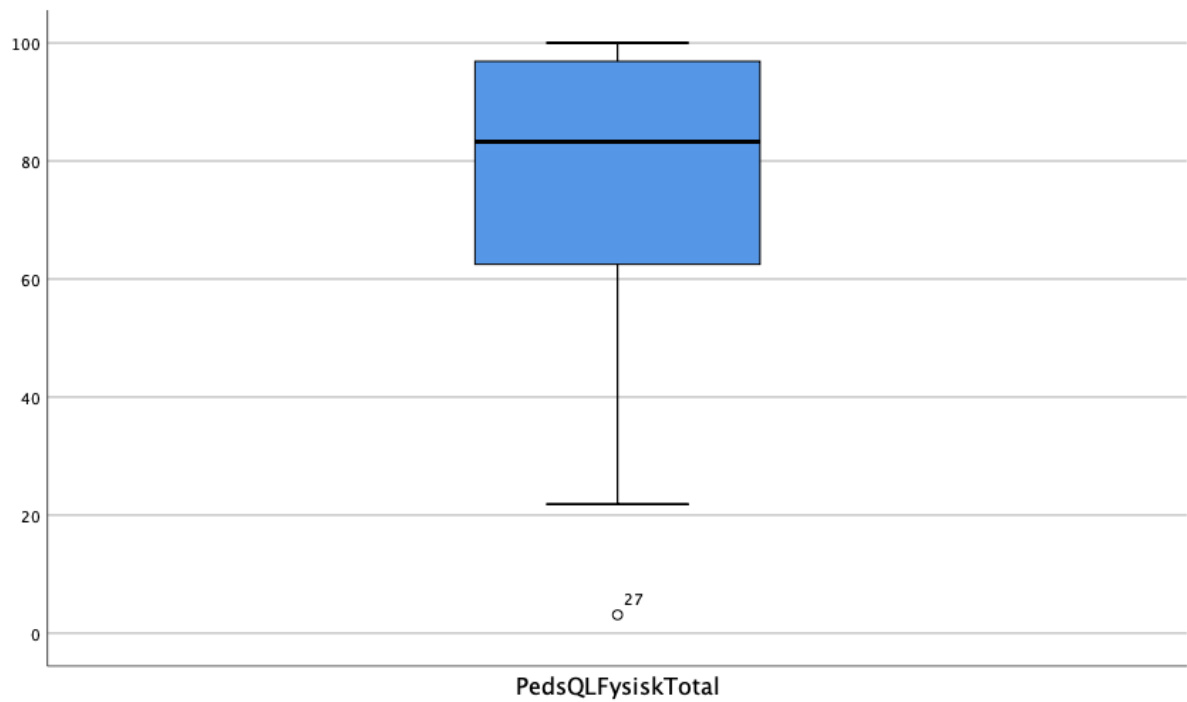
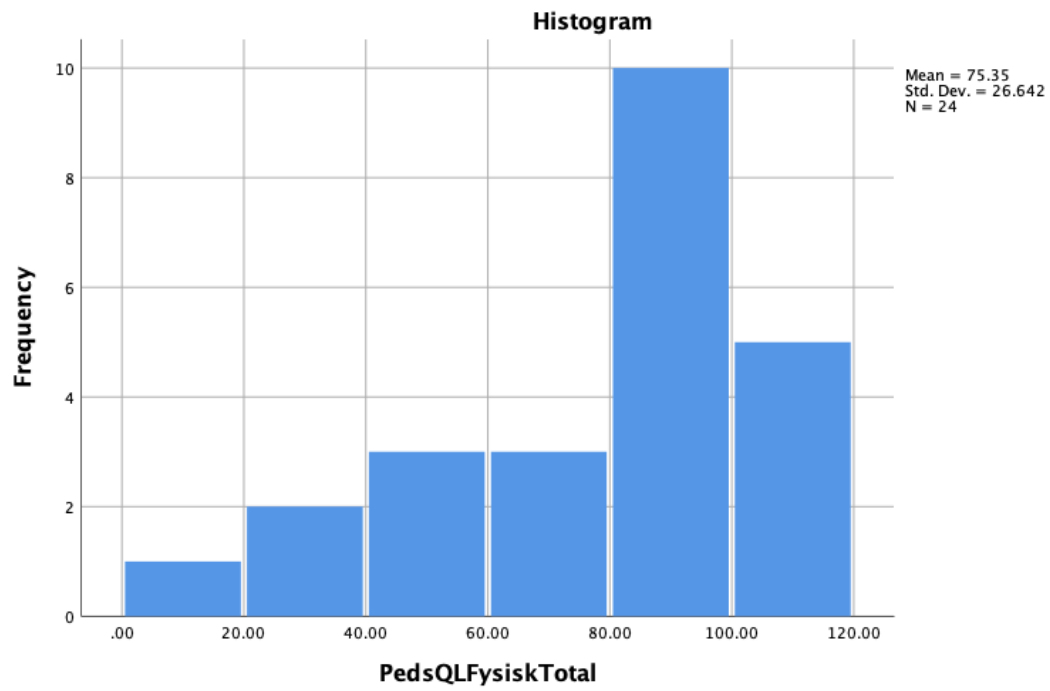
Vi har taushetsplikt og alle svarene blir behandlet konfidensielt. Det betyr at ingen andre får vite hva akkurat du svarer på spørsmålene vi stiller. Du kan når som helst få innsyn i hvilke opplysninger som er registrert. Du har også rett til å få endret på eventuelle feil i de opplysningene vi har registrert.

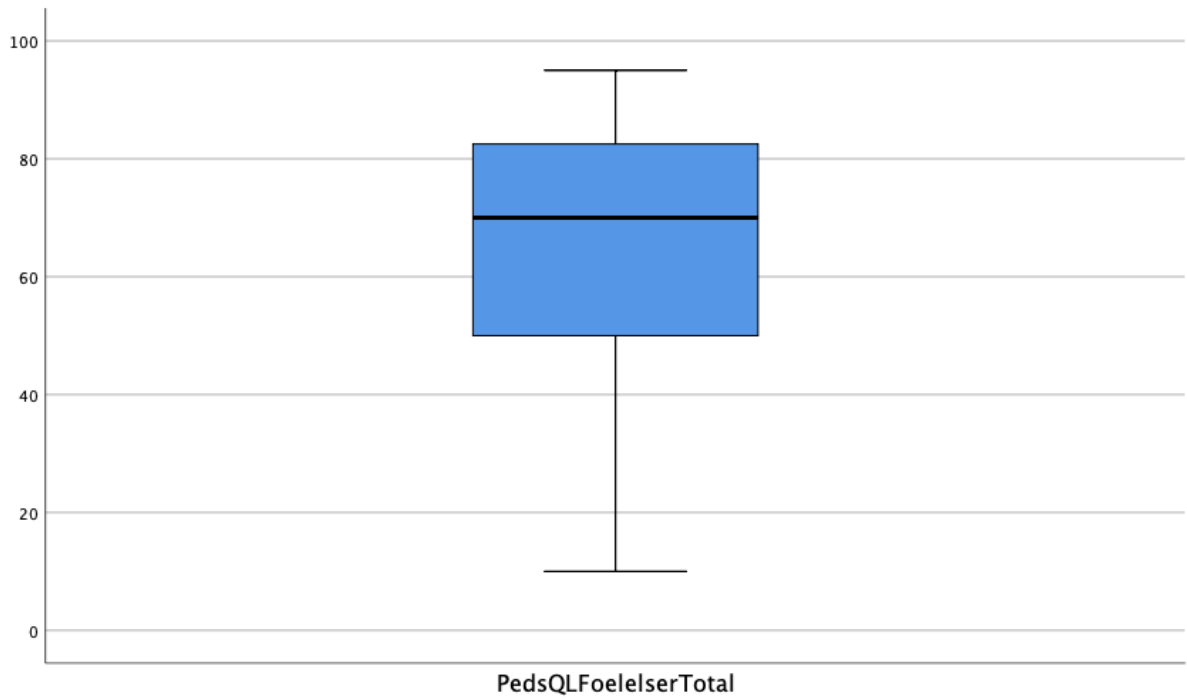
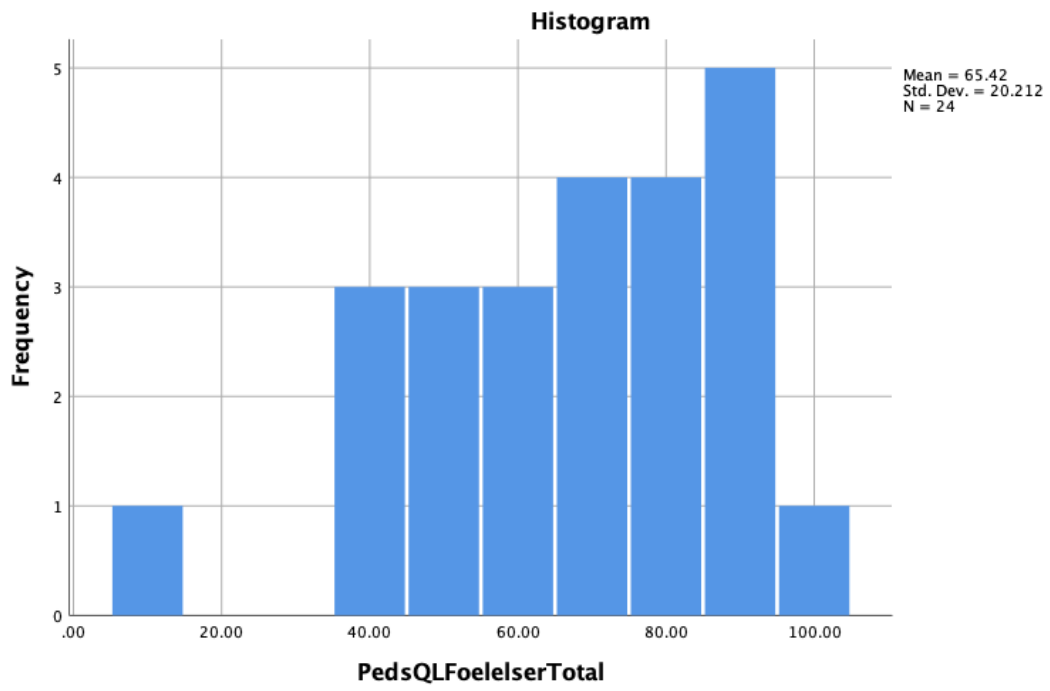
**Kristin Feragen** (tlf: 23 07 53 57), har ansvar for at opplysninger blir behandlet på en sikker måte. Informasjon vil bli anonymisert eller slettet senest fem år etter prosjektslutt.

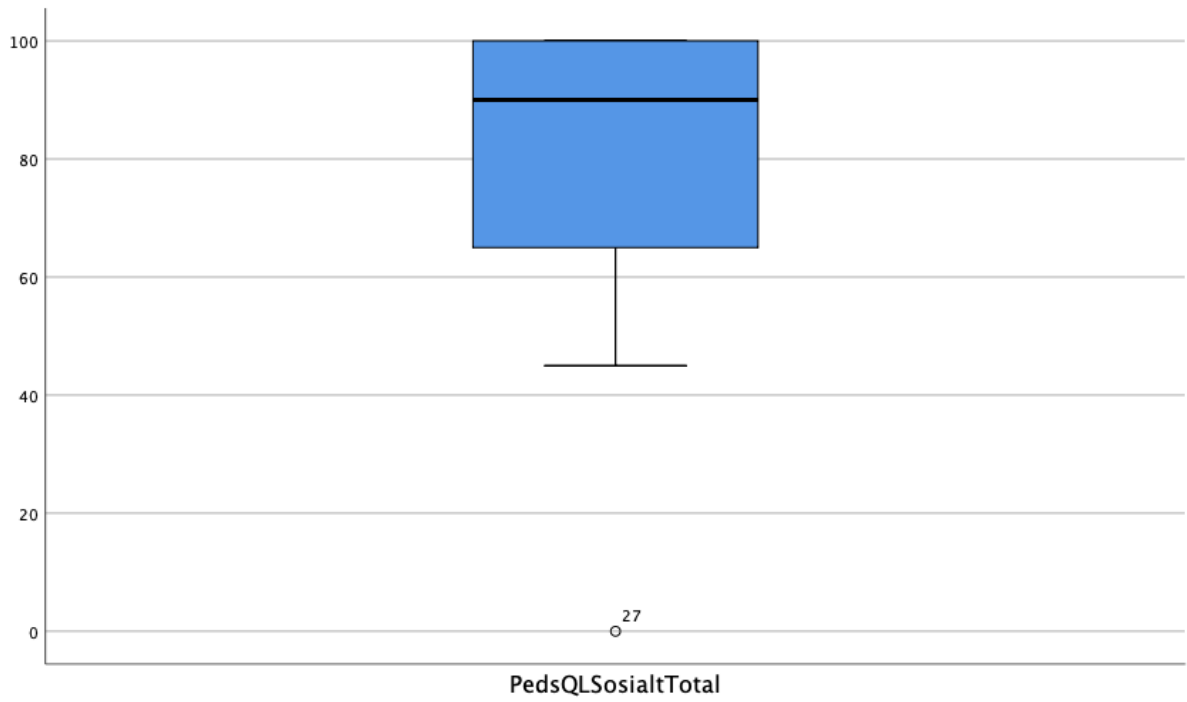
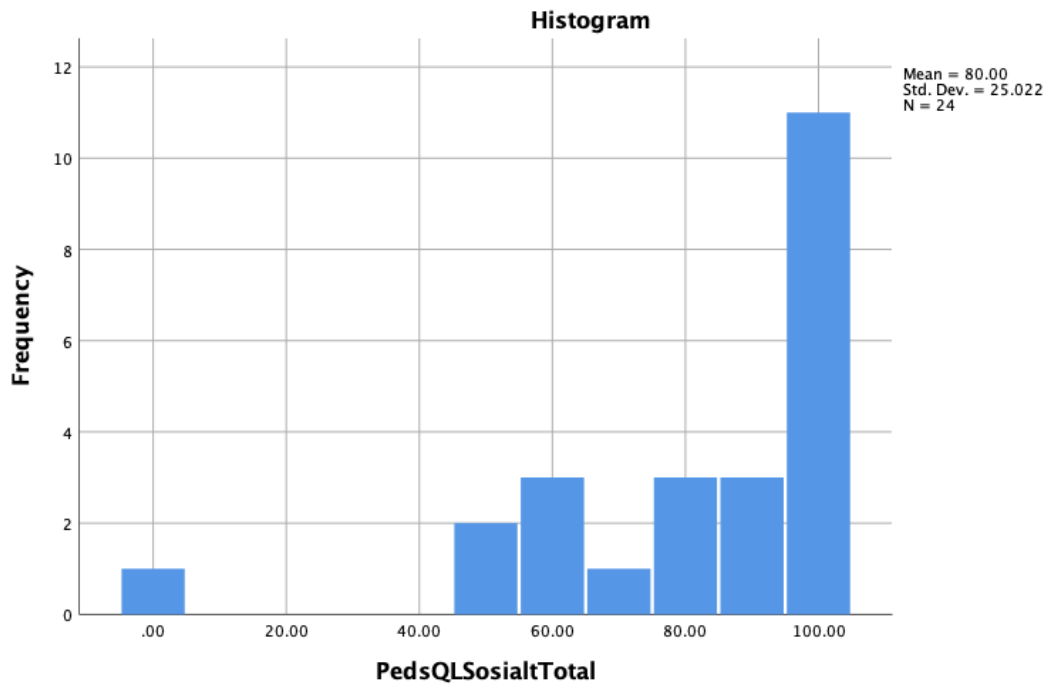
## **GODKJENT STUDIE**

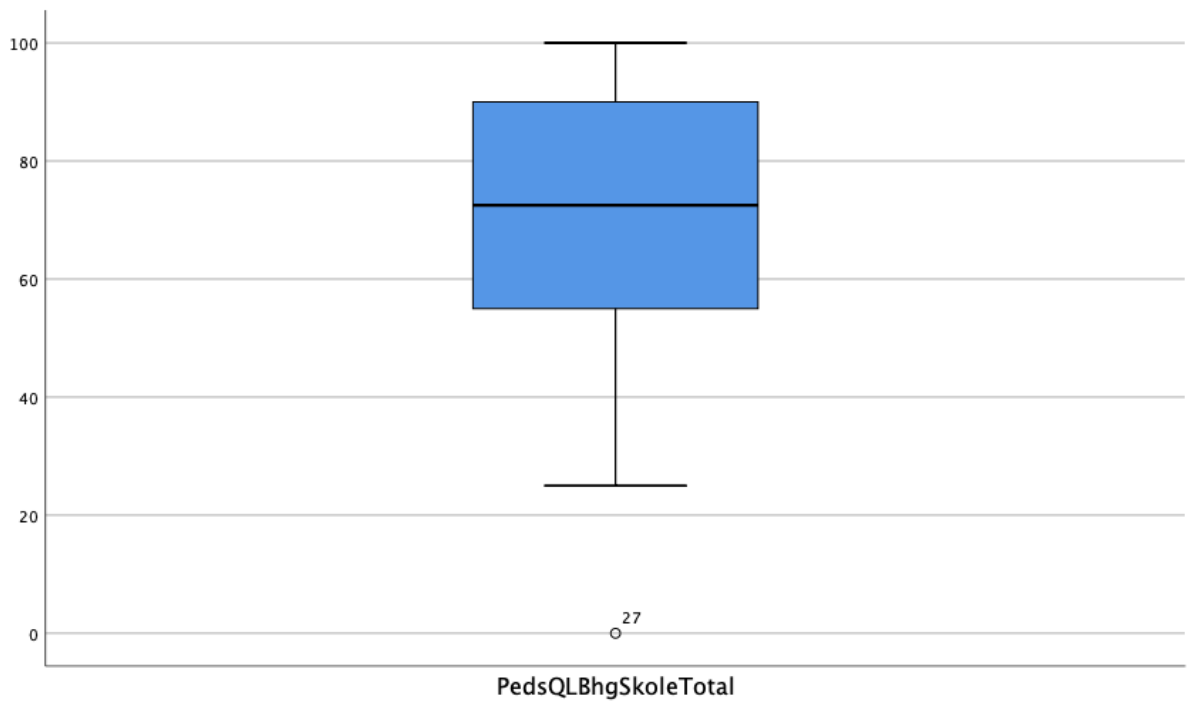
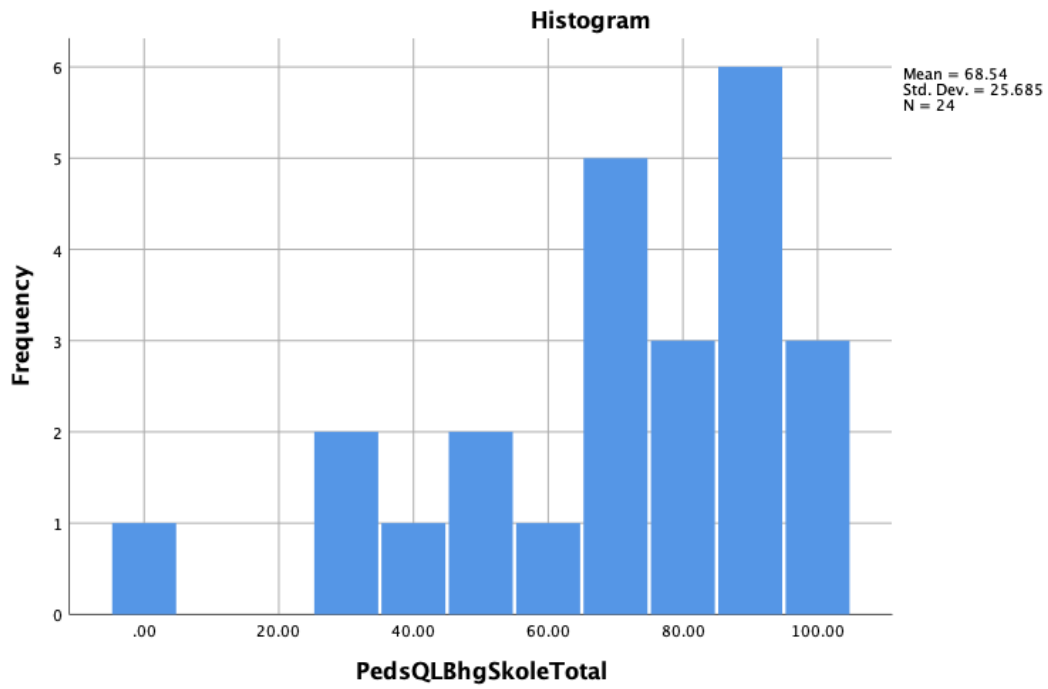
Studien er godkjent av Regional komite for medisinsk og helsefaglig forskningsetikk, 2017/2554.

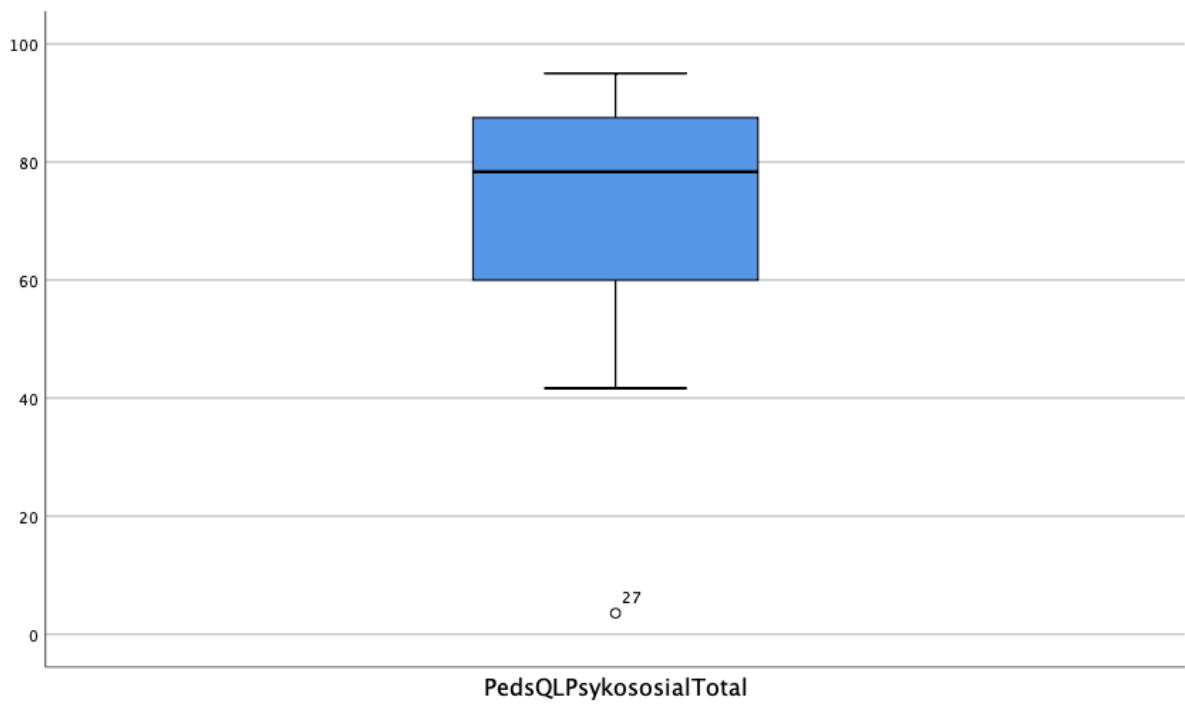
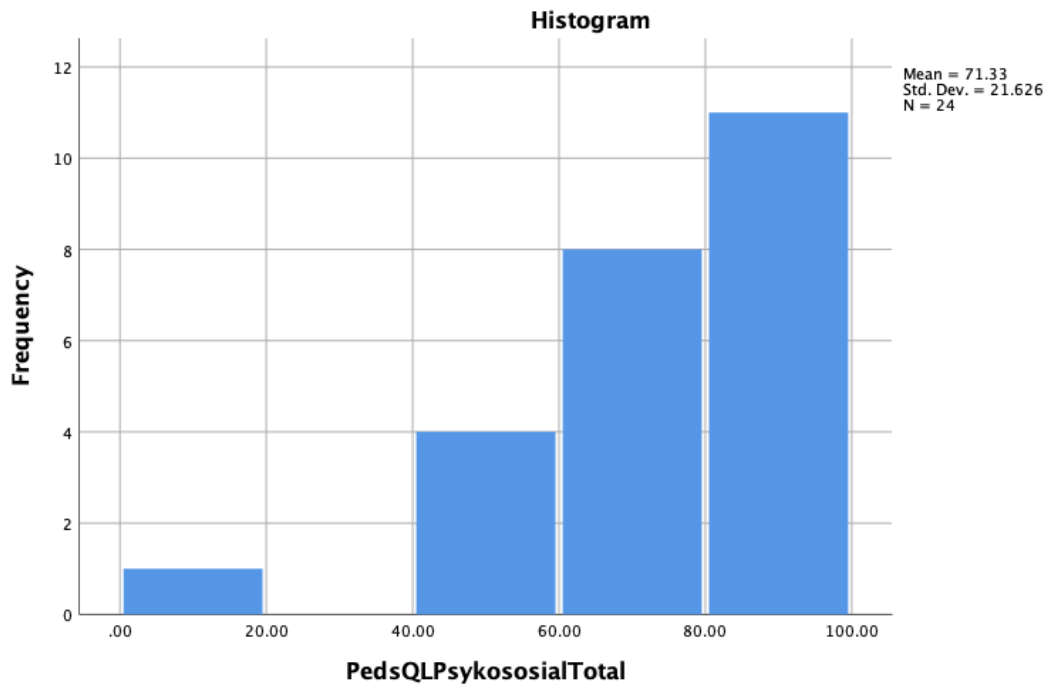
## Vedlegg 2. Boksplokk og histogram for PedsQL



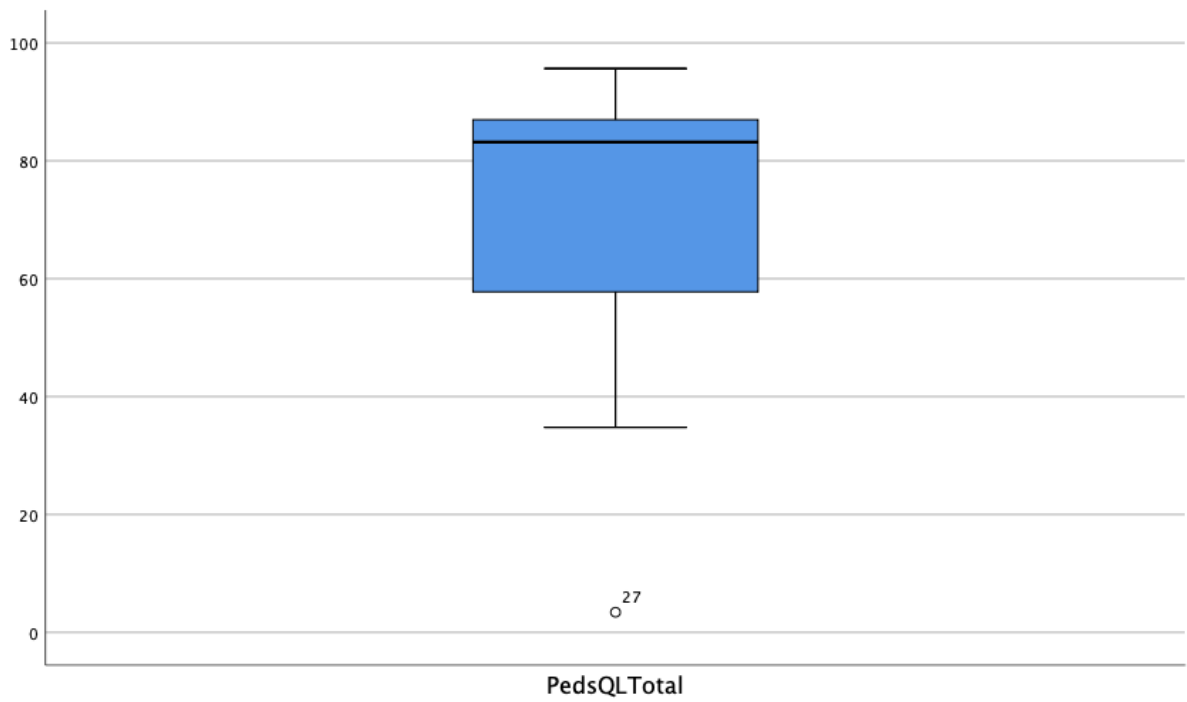
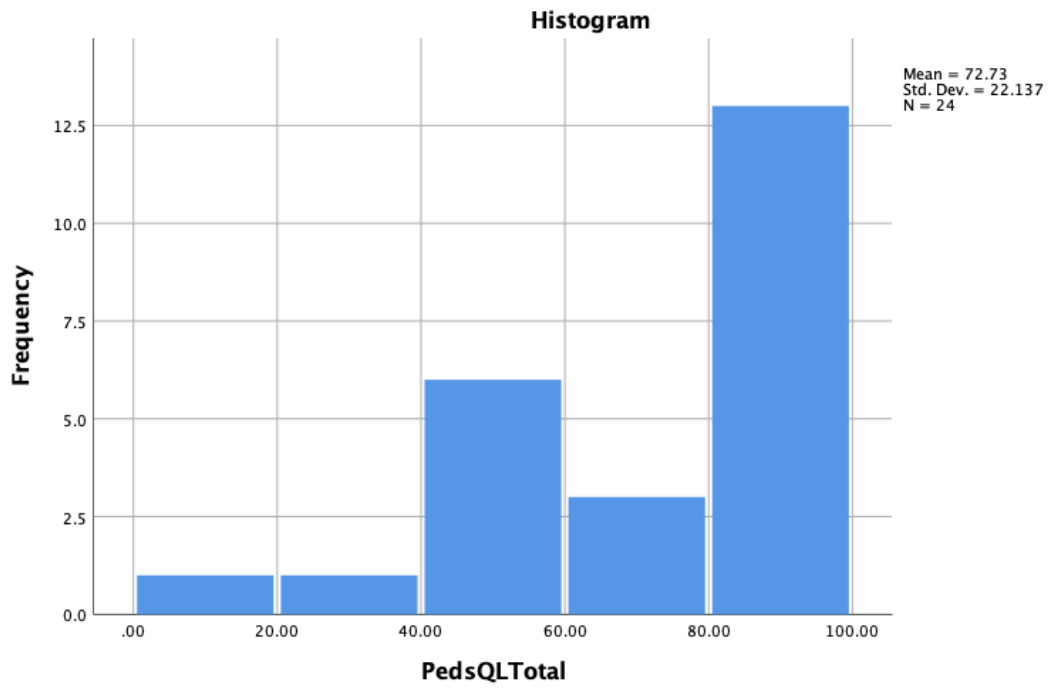




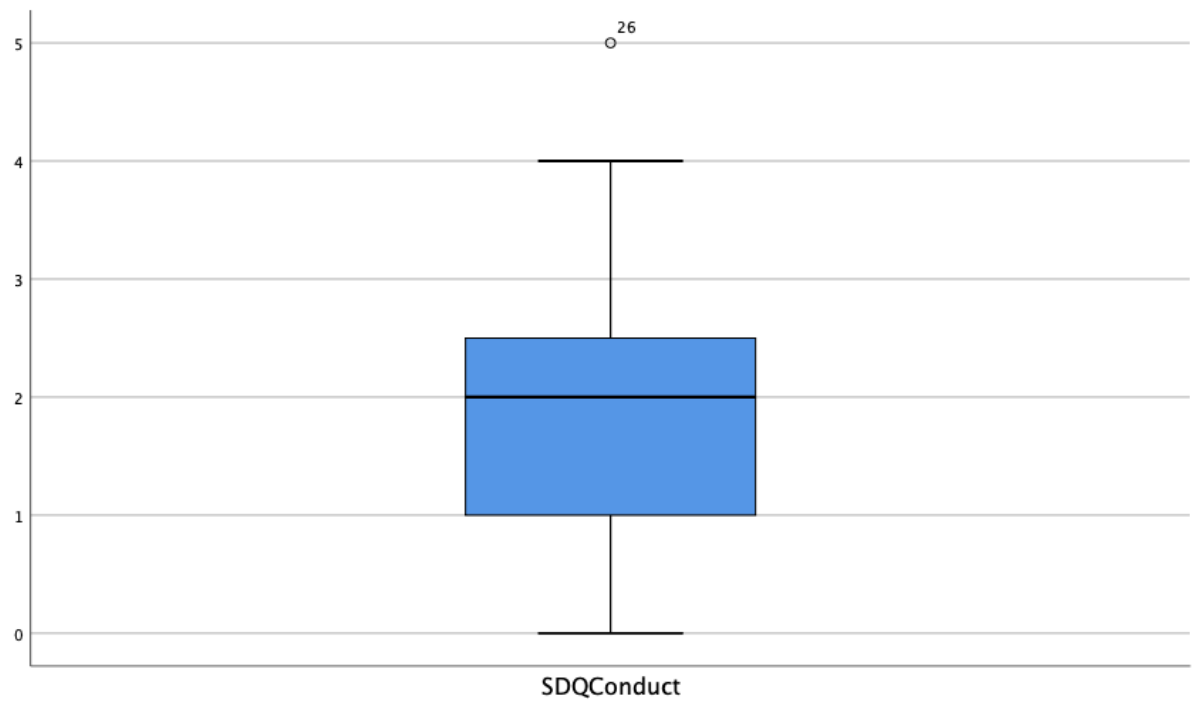
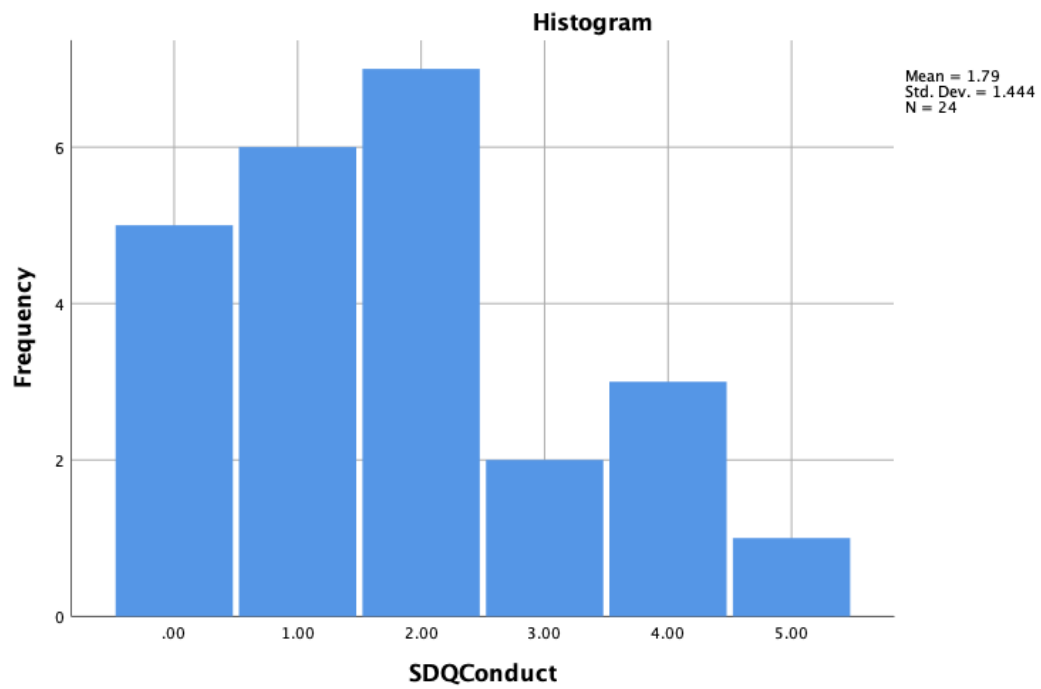


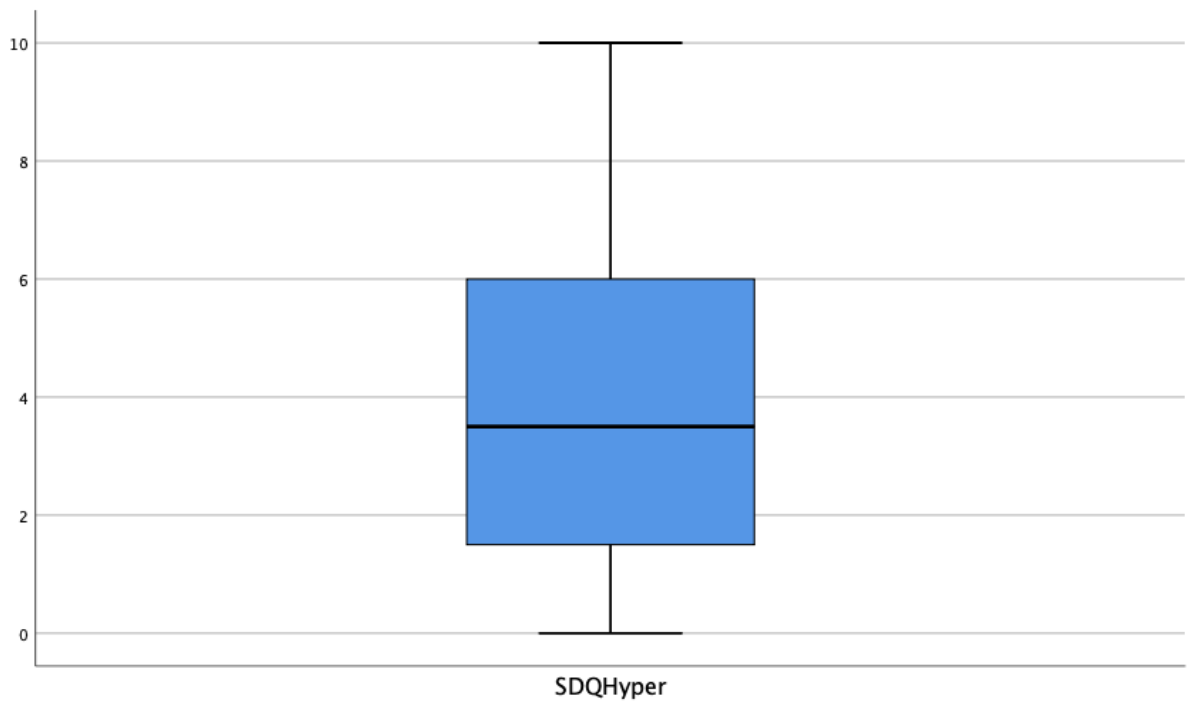
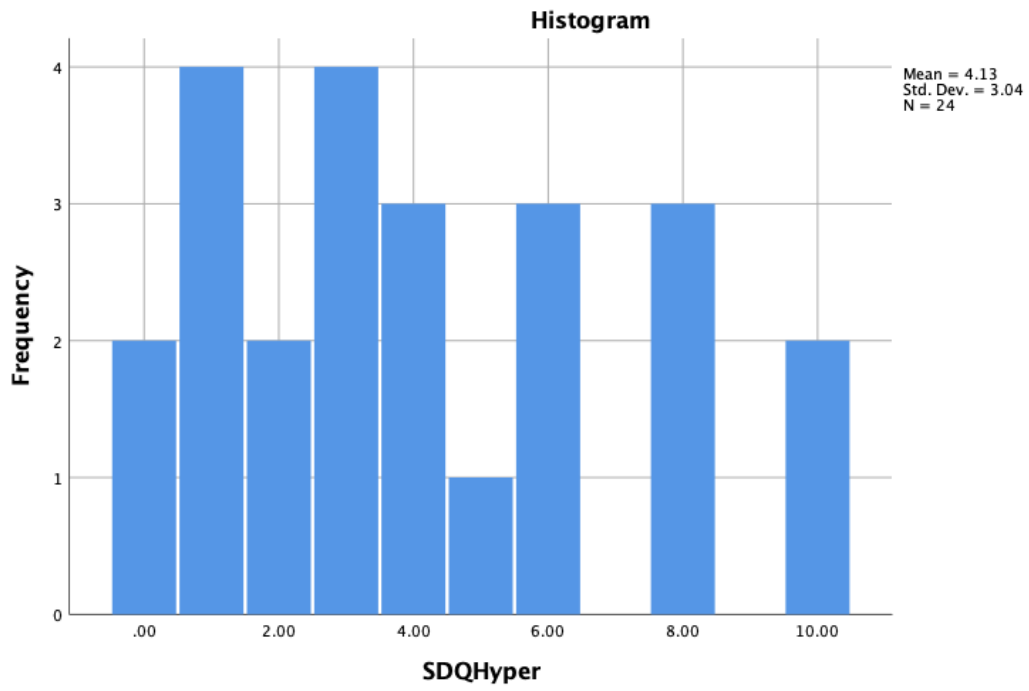


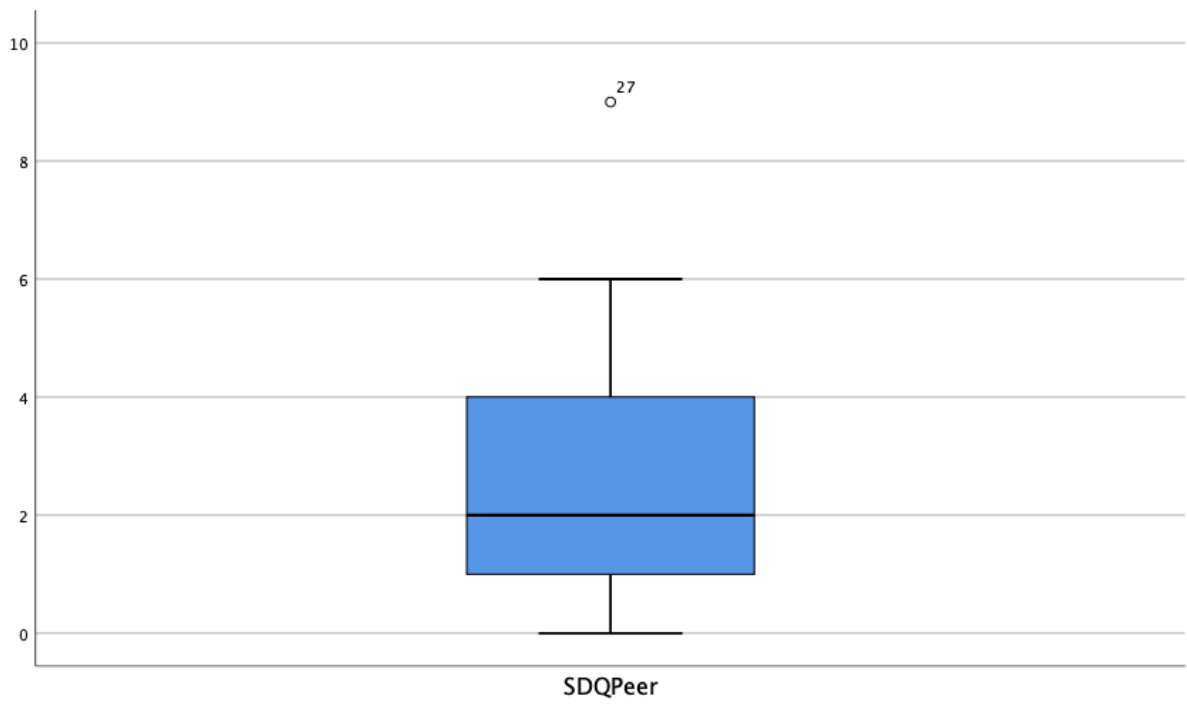
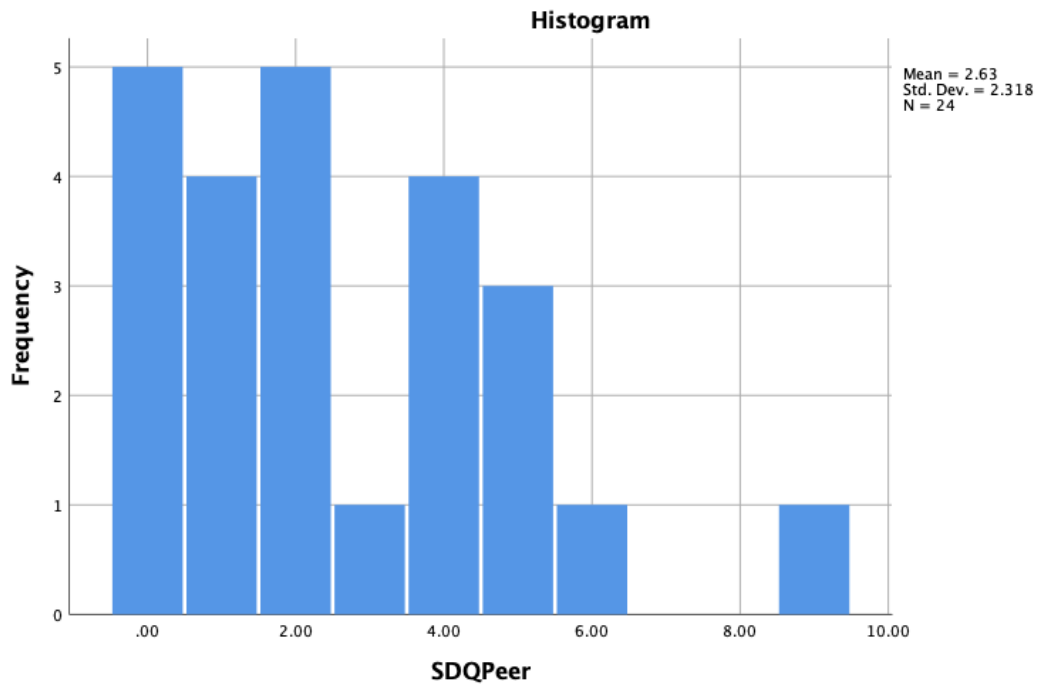


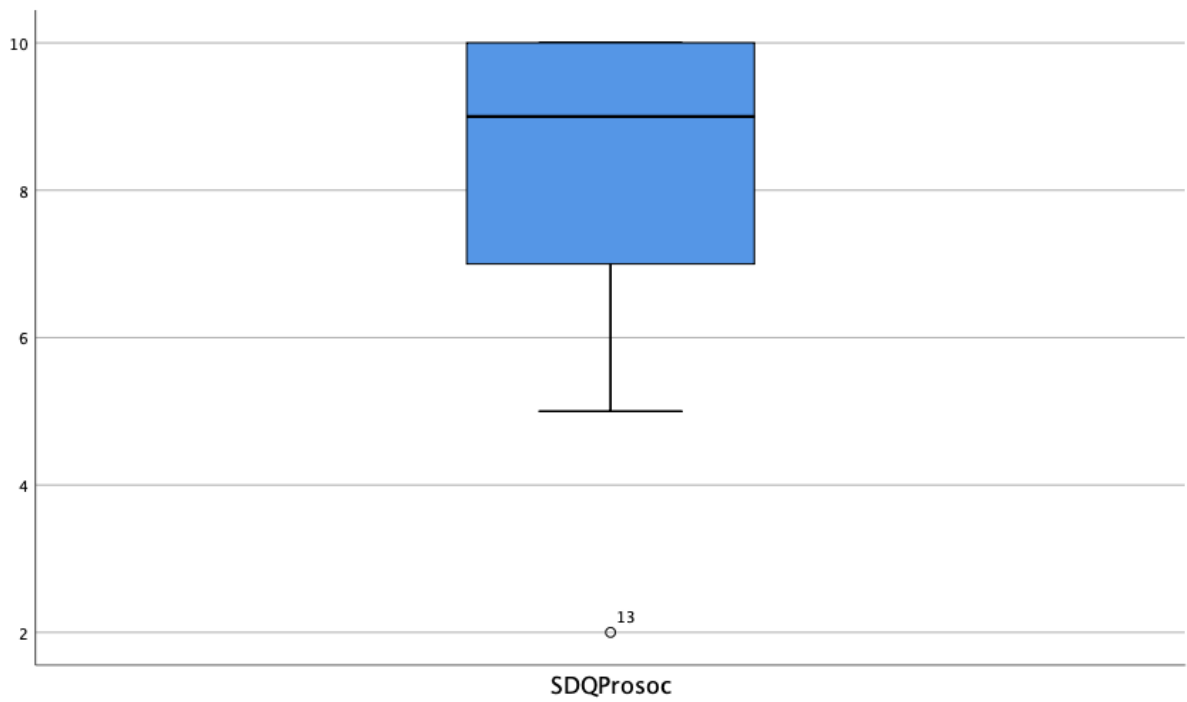
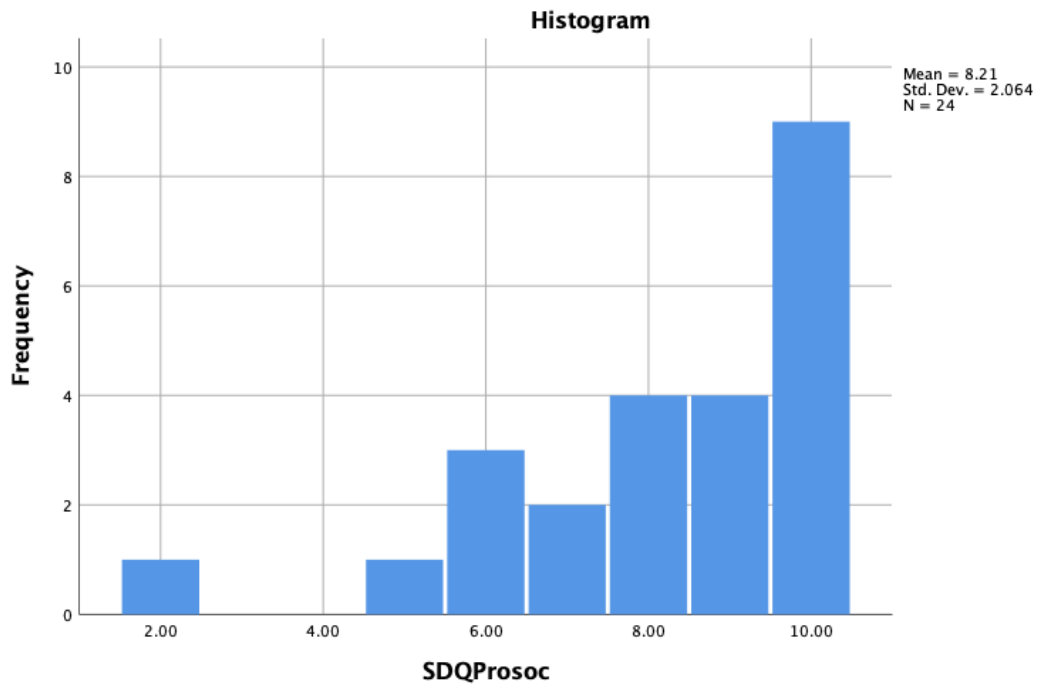


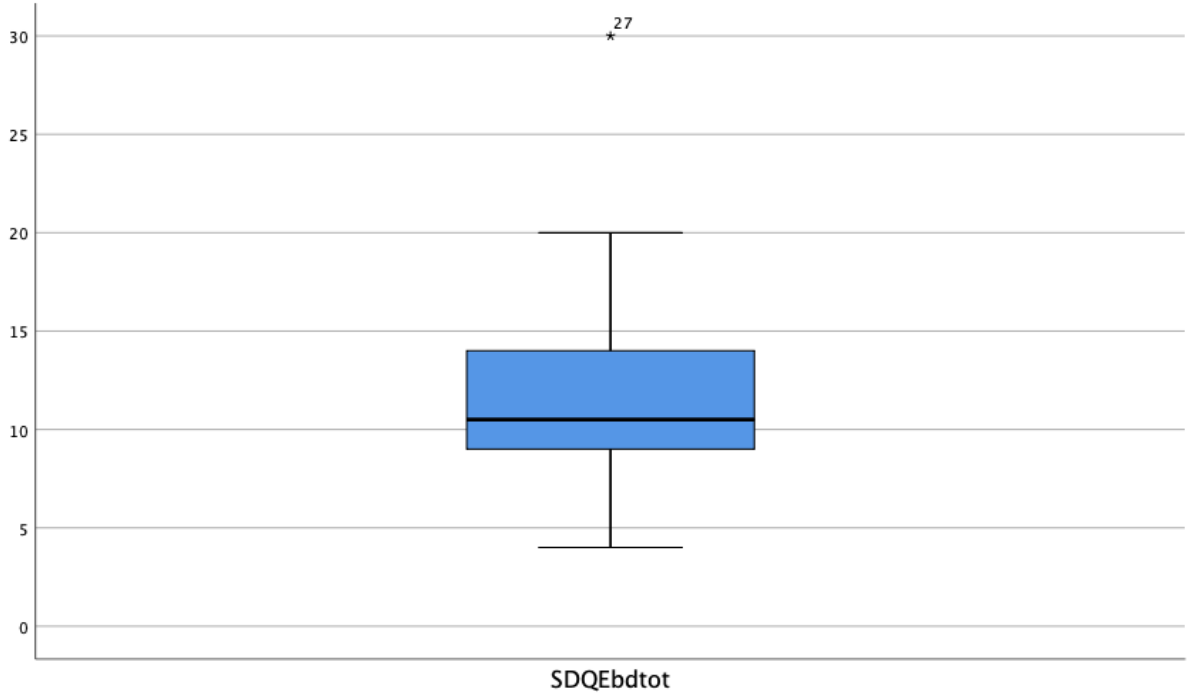
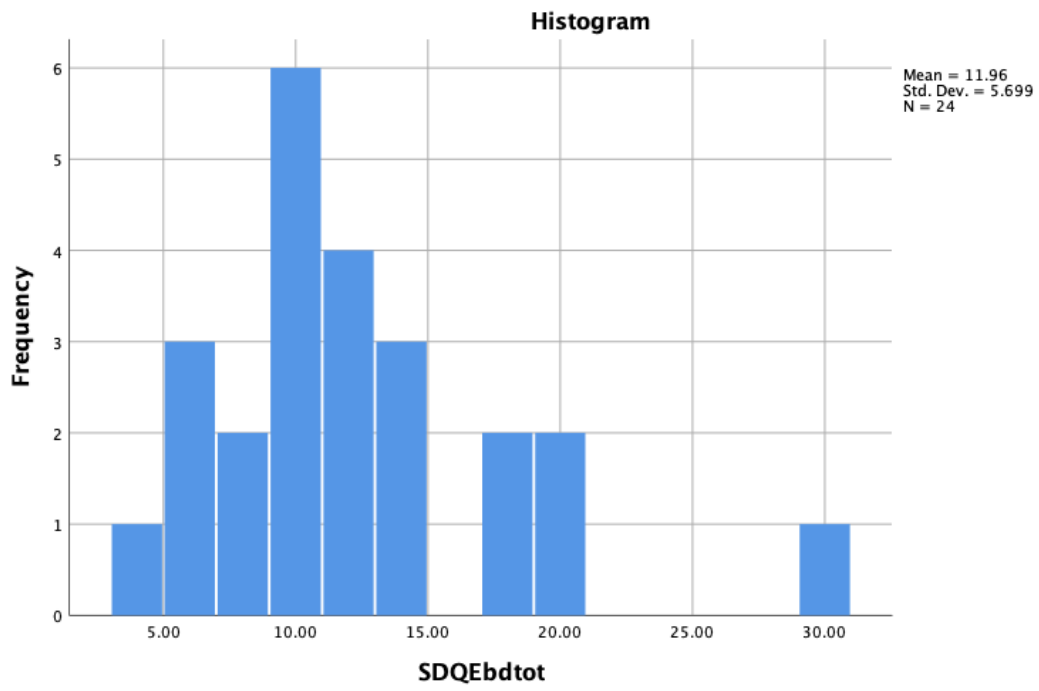
### Vedlegg 3: Boksplokk og histogram for Strength and Difficulties Questionnaire











## Vedlegg 4. Boxplot og histogram: WHOQOL-BREF

