

Kristisk granskning av "National klinisk retningslinje for Fysioterapi og ergoterapi til barn og unge med nedsat funktionsevne som følge af cerebral parese"

Generell är jag mycket imponerad av ert ambitiösa och fina arbete. Det är gjort med stor noggrannhet efter de internationella riktlinjer som numera finns. Arbetet har en bra struktur som gör det lättläst. Jag håller med er om de flesta slutsatserna, i några fall ber jag er modifiera något eller tänk igenom skrivningen en gång till. Bilagorna är mycket bra.

Kapitel 3

Man kan förstå att ni arbetat mycket genomtänkt och systematiskt med metoden för granskning. Dock är det inte så väl beskrivet. Utifrån tabellerna förstår man att ni gjort granskningen utifrån GRADE föreslagna modell men er trovärdighet skulle vinna på att ni angav mer hur ni gått tillväga vid analysen av de aktuella artiklarna och något om artiklarnas status. Ni verkar ha gjort mycket mer än ni rapporterar. För att riktigt förstå hur ni gjort var jag själv tvungen att gå in på hemsidan för GRADE för att förstå processen. Föreslår att ni förtydligar processen.

Kapitel 4.

Det saknas diskussion om hur ni valt era mätinstrument förutom att ni tar med det som finns i CPUP. Har ni haft krav på mätsäkerhet eller hur är det tänkt? Jag saknar en diskussion eller något ställningstagande om hur ni resonerat kring detta. Ni har tagit med ganska många instrument men det är ändå oklart hur ni anses att de ska användas, dvs hur ofta och med vilken prioritet och hur man går med barn med olika svårighetsgrad av funktionsnedsättning. Bilaga 6 ger en beskrivning av testen men det är lite ojämnt, vad som är beskrivit.

Schema 4.1 och 4:2

Varför ar ni valt Quest, det borde vara bättre med ett något bättre val. Föreslår att AHA läggs till men också box and Block, för att få ett bredare perspektiv. Box and blocks kan ju användas av en stor grupp barn.

Går livskvalite instrumenten bara att använda upp till 5 år

Kapitel 5

5.1. Anbefallning är ok. Det var tråkigt att det inte gick att titta på måluppfyllselse för mer än PEDI och GMFM, som ju är begränsade målområden.

5.2.4 Anbefallning ok. Men det (sid 23), finns ingenting i litteraturen som stöder ert förslag om hur insatsen ska genomföras, dvs era två punkter på sid 23. Idag går det inte ens gissa om olika combination av CI och bimanuell träning är bättre än den andre, det finns däremot mycket tyckande

och åsikter. Likaså finns ingen evidens för att någon modell skulle vara bättre än den andra men det finns praktiska orsaker att det är lättare att genomföra vissa modeller i vissa samhällsstrukturer.

5.3 Anbefallning ok. Det är svårt förstå hur ni tänker att Kognition påverkas av stående? Saknar en diskussion om ståträningens betydelse för att lära sig ta stöd på benen för att underlätta förflyttning och ADL. När det gäller ståträning för ökad mineralisering finns det väl en pågående diskussion om dess betydelse. Här saknas en riskanalys, eftersom detta ibland är svårt, barnen vill inte, det tar tid att ställa upp dem och de växer ur sina ståskal fort, blir rodnader och inklämningar så måste risken tas med. Ska detta prioriteras framför andra åtgärder hos denna målgrupp?

5.4 Aktiv och passiv utspandning. Detta var troligvis ett av de svårare avsnitten att skriva eftersom det finns så lite evidens men så starka känslor. Jag ser hur ni försöker balansera detta på något sätt. Det är dock oklart vad ni rekommenderar, hur mycket tror ni man ska göra för att det ska löna sig. Bli det inte lite väl oprecist om ni inte tar upp den frågan. Jag har jämfört er analys med Novak et al 2013, där beskrivs starkare evidens för casting än stretching för att minska kontraktur risken. Har ni funderat på att formulera om er forskningsfråga för att inkludera den litteraturen? Det som är bra är att ni här lyfter utvärderingsperspektivet på ett snyggt sätt.

5.5 Detta stycke känns mycket skakigt, och insatserna bygger på sensorisk stimulering utifrån några få artiklar kring 2000 talet. Jag rekommenderar ni tonar ned era rekommendationer. Ni pratar om sitt ställning och matkonsistens och det är säkert helt rätt men bygger ju på beprövad erfarenhet.

5.6 Ni är ju tydliga på att detta bara är klinisk erfarenhet och er syn på bedömning och dess värde är lätt att ta till sig. Ögonrörelse träning är svårare, finns det någon kunskap om träningsresultat vid andra skador än CP? Er frågeställning är lite oklar – va skulle vanlig behandling vara

5.7 I detta fall har ni kommit fram till andra slutsatser än Novak et al 2013, och ni har också använt er av andra referenser. Ni har nog något annorlunda frågeställning också men jag föreslår att ni läser Novak och tänker igenom era slutsatser en gång till.

5.8 Anbefallning ok. Det verkar vara rimliga antaganden utifrån ert material

5.9 Anbefallning är ok. Även här tycker jag ni gjort rimliga antagande

Generellt ställer ni frågan om insatserna är bättre än sedvanlig praxis, det fungerar oftast men blir lite konstigt ibland t.ex för insatser kring visuella funktioner. Sen kan man ju fråga sig om ni egentligen menar att intensiva insatser är bättre än sedvanlig praxis, där de undersökta insatser ofta ingår men med lägre intensitet än det vanligtvis är i studierna - då jämför lite olika saker. – Se det bara som en lite kommentar, det är ingen kritik i sig.

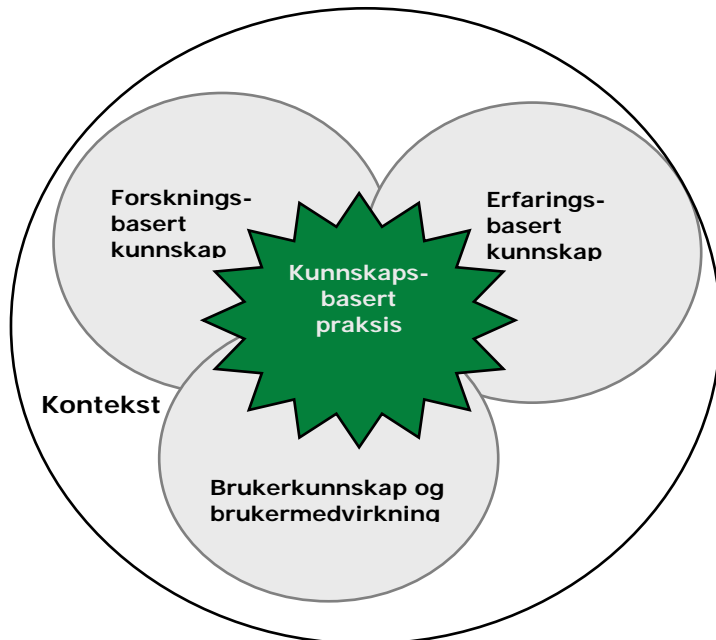
Diskussion om kostnadseffektiviteten ingår i Grade och är diskuterat i flera avsnitt men saknas i en del andra. Det är en viktig diskussion idag.

Review for Sundhedsstyrelsen i Danmark

National klinisk retningslinje for fysioterapi og ergoterapi til børn og unge med nedsat funktionsevne som følge af cerebral parese.

Reidun Birgitta Jahnsen,
Seniorforsker, fysioterapeut dr philos, Barneavdeling for nevrofag, Oslo universitetssykehus

Det er avgjørende at innsatsene for barn med cerebral parese bygger på den best tilgjengelige viten. Jeg har derfor valgt å bygge denne høringsuttalelsen på modellen for kunnskapsbasert praksis som inneholder forskningsbasert kunnskap, erfaringsbasert kunnskap hos aktuelle fagpersoner, og brukerkunnskap, her personer med cerebral parese og deres familier i en dansk kontekst.



Manuskriptets styrker

Retningslinjen er et stort, ambisiøst og imponerende arbeid som er utført av en tverrfaglig arbeidsgruppe og drøftet med en bredt sammensatt følgegruppe der også brukerrepresentanter er med. Formålet med retningslinjen er klart definert, og det er valgt å bygge anbefalingene på arbeidsgruppens vurdering av eksisterende forskningslitteratur og vurderinger av beste praksis der forskning ikke finnes.

I henhold til definisjonen av rehabilitering i Norge skal innsatsene være "planlagte, tidsavgrensede prosesser med klare mål og virkemidler der flere aktører samarbeider om å gi støtte til brukerens egen innsats for å oppnå best mulig funksjon og mestringsevne, selvstendighet og deltakelse sosial og i samfunnet" (St. Meld. 21/1998-99, kap 2.1). Denne definisjonen peker på fire sentrale innholdsmessige elementer i rehabilitering; rehabiliteringsinnsatser skal være målrettede, tverrfaglige/-etatlige og brukersentrerte (her familiesentrerte), samt bygge på en bio-psykososial forståelsesmodell for funksjonsevnenedsettelse. Alle disse elementene finnes i retningslinjen

Innledning – bakgrunn og formål

Innledningen inneholder bakgrunnsinformasjon som refererer til en omfattende oversikt over relevant litteratur på feltet. Hensikten med retningslinjen er klart definert, den skal bidra til kunnskapsdelig og evidensbasert, ensartet praksis i hele landet. Rehabilitering er definert i henhold til WHO, som også er grunnlaget for den norske definisjonen. ICF-CY er valgt som rammeverk for retningslinjen, et rammeverk som bygger på en bio-psykososial forståelsesmodell av funksjonsevnedsettelse, og som også tar hensyn til de utviklings- og læringsprosesser som barn er i. ICF strukturerer undersøkelsene av evidens på en god og internasjonalt anerkjent måte. Poengteringen av koordinerte tverrfaglige og tverretatlige innsatser er tydelig og viktig med tanke på cerebral parese som en svært kompleks tilstand. Diagnosegruppen er beskrevet med tilstrekkelige detaljer til å legitimere retningslinjens fokus på fysio- og ergoterapiinnsatser, og avgrensningene er klart definert.

Metode

Arbeidsgruppens fremgangsmåte og metodebruk er grundig beskrevet med begrunnelser for valg av strategier som er tatt underveis i prosessen. Oversikten over graderingen av evidens for de ulike innsatsene med GRADE i retningslinjen kombinert med de detaljerte beskrivelsene i bilagene framstår som en god og leservennlig strategi. Dette gjør det mulig for leseren å velge detaljeringsnivå ut fra for interesser og behov for kunnskap om spesielle innsatser eller fremgangsmåter/analyser. De ni fokuserte spørsmålene som arbeidsgruppen valgte å vurdere er sentrale i oppfølgingen av barn med cerebral parese, og prosessen fra evidens til anbefalinger er grundig beskrevet i retningslinjen og i bilag 5.

Kapitlet om redskaper som anbefales brukt i monitoreringen av barn med cerebral parese gir en god oversikt i tabellene på side 14-15, og med mer detaljerte beskrivelser i Bilag 6. De vil sannsynligvis være til stor nytte for fysio- og ergoterapeuter, men også være et imperativ til å oversette en del av dem til dansk (nevnt i Bilag 8), og til å validere dem til danske, eller kanskje til skandinaviske forhold i samarbeid med svenske og norske kolleger som også har en jobb å gjøre med flere av instrumentene.

Fysio- og ergoterapeutiske innsatser

Gjennomgangen av de ni utvalgte innsatsene er grundig beskrevet med en overveiende enhetlig struktur som gjør det enkelt å følge vurderingsprosessene.

I beskrivelsen og vurderingen av noen av innsatsene poengteres involvering av foreldrene både i målsettingsprosessen og i gjennomføringen av innsatsen. Dette synliggjør eksplisitt familiesentrert praksis, som er en viktig del av definisjonen av rehabilitering.

I beskrivelsen og vurderingen av en del av innsatsene nevnes målrettethet som karakteristikk ved innsatsen og måloppnåelse som et av effektmålene, og synliggjør med dette både hensikten med innsatsen og om målene nås. Her synliggjøres også foreldrenes og barnets mulighet til å påvirke innsatsen ved å delta i målprosessen, og i hvor og hvordan den skal gjennomføres. Klare mål og virkemidler og flere aktører som samarbeider om å støtte familien i rehabiliteringsprosessen blir her også eksplisitt.

Enkelte innsatser beskrives slik at ICF dimensjonene er eksplisitt synlige både i mål for innsatsen, i innsatsens innhold og i evalueringen. Dette tydeliggjør det valgte rammeverket som en rød tråd vurderingen.

Retningslinjen er lett å lese med et klart og tydelig dansk, men likevel med et faglig presist språk. Layouten er delikat, innbydende og med en enhetlig struktur som gjør den leservennlig. Målgruppene for retningslinjen er klart definert, med en leserveiledning som gjør det enkelt å finne fram både i retningslinjen og i bilagene. Sentrale begreper er definert i en fylldig ordliste, og en del viktige begreper er også definert i beskrivelsene av innsatsene.

Manuskriptets væsentligste svagheder og mangler

Den første innsatsen som beskrives og vurderes i retningslinjen er, Måltrettet trening av funksjoner. Her nevnes også viktigheten av å involvere foreldrene. Måltrettethet, evaluering av måloppnåelse og involvering av foreldrene i målsettingen, eventuelt også i gjennomføringen og evalueringen av innsatsen er imidlertid ikke konsekvent tatt med i beskrivelsen og vurderingen av alle de andre innsatsene. Burde ikke dette gjelde alle innsatsene, på samme måte som at alle innsatsene skal evalueres? Brukersentrert/familiesentrert praksis bygger på viktige verdier som også kunne vært et rammeverk for retningslinjen (www.canchild.ca) sammen med ICF-CY.

Bakgrunnskapitlet beskriver rehabilitering av barn med cerebral parese som tverrfaglig og tverretattlig, og fysio- og ergoterapi er svært vesentlige deler av denne rehabiliteringen. Dette følges imidlertid ikke opp i vurderingen av alle innsatsene. Fysio- og ergoterapi er sammen også tverrfaglige innsatser som kan foregå i kommunehelsetjenesten eller i spesialisthelsetjenesten. Imidlertid foregår fysio- og ergoterapi for barn med cerebral parese nesten aldri alene, men stort sett alltid i kombinasjon med f.eks. spastisitetsbehandling (Botulinum toxin-A eller Baklofen) og/eller gips og ortoser ut fra beste kunnskap. Dette nevnes i Bilag 8 under forslag til oppdatering av retningslinjen. Arbeidsgruppen har altså tenkt på denne problemstillingen, men valgt å ikke utdype den, muligens av tidshensyn?

Barn med cerebral parese er en svært heterogen gruppe. Selv innad i de ulike GMFCS nivåene er det stor variasjon. På side 19 står det at en treningsperiode på 8-20 uker vurderes å være hensiktsmessig for de fleste treningsforløp av målrettede funksjoner. Imidlertid kan en slik standardisering være en av mange årsaker til manglende påvisbar effekt i RCTer for trening av funksjonelle ferdigheter hos barn med cerebral parese. Enkelte deltakere med god funksjon kan oppnå takeffekt på kort tid med de aktuelle effektmål, og har derfor ikke noe større bedringspotensiale, mens andre trenger veldig lang tid og mange repetisjoner for å oppnå bedring. En gjennomsnittsverdi på gruppenivå er derfor ikke tilstrekkelig til å hjelpe oss med å utvikle effektive og trygge innsatser innen rehabilitering av barn med cerebral parese.

Dersom vi skal få kunnskap om betydningen av ulike innsatsers intensitet og varighet (nevnt i Bilag 8), er det derfor behov for å vurdere studier med single subject design. Innen cancerbehandling og -forskning skreddersys nå behandling på DNA-nivå for å oppnå mest mulig effekt med minst mulig skader og bivirkninger. Individualiserte, skreddersydde treningsopplegg bør også vurderes innen rehabilitering av barn med cerebral parese, da barn på de ulike GMFCS og MACS nivåene har svært ulike risikofaktorer og innsatsbehov. Det å bruke et barns tid er en alvorlig bivirkning som alltid bør vurderes nøye og individuelt opp mot det overordnede målet om deltakelse sosialt og i samfunnet. Når skal det velges å kompensere for funksjonsevnedsettelsen ved å gjøre en innsats relatert til omgivelsene isteden for trening? Funksjonelt sett kan effekten bli den samme (Law et al 2011)

I tillegg til gode studier med single subject design burde populasjonsbaserte forløpsstudier vurderes. De kan gi oss verdifull kunnskap om effekten av systematisk monitorering og registrering av innsatser over tid, slik forskningen i det svenske CPUP-registeret har gjort (Hägglund et al 2005 a, b, Nordmark et al 2009), og som det danske og norske CPOP-registeret vil gi oss store muligheter til om noen år.

Eventuelle forslag til endringer

Retningslinjen er ment å kunne brukes som beslutningsstøtte av fagpersoner som skal velge den beste innsats i en spesifikk klinisk situasjon, eller av brukere som ønsker mer kunnskap om innsatsen for å kunne delta i beslutningen. Vil denne retningslinjen være til hjelp i slike situasjoner? Det er ikke arbeidsgruppens feil at det finnes lite forskning på dette feltet og at

forskningen jevnt over har lav kvalitet, men kunne arbeidsgruppen ha gjort andre valg som kunne gjort retningslinjen til en bedre beslutningsstøtte?

Forskningkunnskapen er systematisk innsamlet og vurdert i henhold til internasjonalt etablert metodikk. Et alternativ kunne vært å inkludere flere typer studier enn RCTer, som gode studier med single subject design, multi method design og populasjonsbaserte forløpsstudier. Det er én innsats der den danske retningslinjen kommer til et annet resultat enn en annen ny kunnskapsoppsummering, nemlig ridning. Novak og medarbeidere (2013) som også har anvendt GRADE i sin nye systematiske review gir rideterapi en svak anbefaling.

Erfaringskunnskapen til fagpersonene i arbeidsgruppen er anvendt i valg av de ni fokusspørsmålene og i vurderingen av ulike intervensjoner ut fra beste praksis. Her beskrives innsatsene på en slik måte at en kliniker vil kunne få hjelp til hvordan innsatsen skal kunne gjennomføres og evalueres. Forutsetninger for implementering av innsatsene er også beskrevet, og foreldrenes involvering og tilfredshet er trukket inn med henvisning til andre typer studier en RCTer. Kostnader er også vurdert opp mot antatt nytteverdi.

Brukerkunnskapen og -medvirkningen er den kunnskapen som er minst ivaretatt i retningslinjen. Det var ingen brukere med i arbeidsgruppen, bare i følgegruppen, og representasjonen var liten også der. Et strategisk utvalg av personer med cerebral parese og deres familier kunne bidratt til denne kunnskapen. Eventuelt kunne en enkel kartleggingsundersøkelse bidratt til å få kunnskap om brukernes opplevelse av nytten av ulike intervensjoner.

Noen detaljer

Retningslinjen er lett å lese med et godt språk. Det er imidlertid noen begreper som kan overveies.

- I første avsnitt i 2.1. Bakgrunn, står det "om trening **af** mennesker med funksjonsevnenedsættelse". Dette **af** kan gi inntrykk av at trening er noe som kan påføres andre, som om de ikke måtte trene selv? Trening for mennesker med funksjonsevnenedsættelse kan være et alternativ.
- Kapittel 2.3 heter "Beskrivelse af **patientgruppe**". Grupper med ulike funksjonsevnenedsættelser er imidlertid ikke alltid pasienter, selv om de har en diagnose. Begrepet, **diagnosegruppe** kan være et alternativ.
- Den siste S'en i GMFCS står for System, ikke Scale.
- I Figur 4.3 (de andre tabellene kalles skjema) bør det presiseres at PedsQL og CP-CHILD handler om **helserelatert** livskvalitet, og **CP-CHILD** er kun beregnet til barn på **GMFCS nivå IV og V**.
- I Skjema 4.2 anbefales **PEDI** for alle de tre aldersgruppene. PEDI er imidlertid bare validert for barn med mellom **6 mndr og 7,5 år**, selv om manualen sier at den kan anvendes til eldre barn dersom funksjonsnivået faller innunder dette aldersspennet. Spesielt innen området "Sosial fungering" vil items i PEDI være irrelevante og kanskje oppleves nedlatende for tenåringer.
- Sentrale begreper som "**intensive innsatser**" er definert i kapitlet om håndfunksjon, noe som er viktig, da intensiv kan bety ulike ting. Her betyr det frekvens eller omfang av trening, mens det i andre sammenhenger kan bety treningsbelastning, økt puls, økt motstand, antall repetisjoner osv. Intensitet er imidlertid ikke definert i innsatsen om Positionering i den stående stilling. Å øke intensiteten av posisjonering i stående stilling høres underlig ut. **Omfang** kan være et alternativ.
- Der hvor arbeidsgruppen anser det for **god praksis** at en innsats overveies anvendt, kan ordlyden høres mer positiv ut enn der det bare står at en innsats kan overveies anvendt. Selv om det siste alternativet er en sterkere anbefaling enn det første, om enn begge er svake, kan kanskje en leser som ikke har satt seg inn i kriteriene for anbefalingene misforstå styrken i anbefalingene her?

- Nederst på side 8 er det oppgitt noen tall som jeg stusser ved. I Cerebral pareseregisteret i Norges årsrapport for 2012 oppgis det at 21% har epilepsi og 15% har psykisk utviklingshemming (www.siv.no/cprn), mens det oppgis **75% med epilepsi** i denne retningslinjen, og bare **40% med IQ over 70?** Registreringen av kognitiv funksjon i det norske registeret er riktignok noe usikker.

Konklusjon

Helhetsinntrykket av retningslinjen er nedslående, i den forstand at RCTene viser liten sikker effekt av innsatsene. Fysio- og ergoterapeutenes erfaringskunnskap nyanserer imidlertid dette bildet, og brukernes kunnskaper kunne nyansert det ytterligere. Retningslinjen avsluttes med forslag til oppdatering og fremtidig forskning. Her nevnes flere av de ting jeg savner i retningslinjen. Arbeidsgruppen er altså oppmerksom på disse mangler, men har av tidsmessige årsaker ikke kunnet gå inn i dem i denne prosessen. Det er sannsynlig at en dansk retningslinje også ville være nyttig i Sverige og Norge. Om få år vil den svenske, danske og norske CPUP/CPOP databasen til sammen kunne danne grunnlag for en felles skandinavisk retningslinje for oppfølging av barn med cerebral parese. Sammen med systematiske kunnskapsoppsummeringer vil disse databasene kunne gi mulighet for jevnlige oppdateringer ut fra de best dokumenterte kombinasjonsinnsatser til enhver tid.

I Norge eksisterer det regionale og lokale referanseprogrammer for oppfølging av barn og unge cerebral parese. CPOP i Norge har avdekket at oppfølgingen er svært forskjellig rundt i landet. Den norske CP-foreningen, Cerebral pareseregisteret og CPOP har derfor sendt en felles henvendelse til Helsedirektoratet og bedt dem nedsette en arbeidsgruppe for å utarbeide en nasjonal klinisk retningslinje for oppfølging av personer med cerebral parese i Norge. Kanskje kan den danske retningslinjen ses på som en "flere-trinnsrakett"? Dette er det første trinnet, som har ført oss et stykke på vei, og som vi kanskje kan bygge videre på i fellesskap?

Referanser

Hägglund G, Andersson S, Düppe H, Lauge-Pedersen H, Nordmark E, Westbom L. Prevention of severe contractures might replace multi-level surgery in CP. Results of a population based health care program and new techniques to reduce spasticity. *Pediatr Orthop*. 2005;14:268-272.

Hägglund G, Andersson S, Düppe H, Lauge-Pedersen H, Nordmark E, Westbom L. Prevention of hip dislocation in children with cerebral palsy. The first ten years experience of a population-based prevention programme. *Bone Joint Surg*. 2005;87-B:95-101.

Law MC, Darrach J, Pollock N, Wilson B, Russell DJ, Walter SD, Rosenbaum P, Galuppi B. 2011 Focus on function: a cluster, randomized controlled trial comparing child- versus context-focused intervention for young children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 53(7), 621-629

Nordmark E, Hägglund G, Lauge-Pedersen H, Wagner P, Westbom L. Development of lower limb range of motion from early childhood to adolescence in cerebral palsy – a population based study. *BMC Medicine* 2009, 7:65.

Novak I, McIntyre S, Morgan C, Campbell L, Dark L, Morton N, Stumbles E, Wilson S-A, Goldsmith S. A systematic review of interventions for children with cerebral palsy: state of the evidence. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2013, 55: 885–910.

Stortingsmelding 21 (1998-99) Ansvar og meistring. Sosial- og helsedepartementet 1998.