

Kulturell anpassning, validitets- och reliabilitetstest av Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire för en svensk kontext

*Cross-cultural Validation and Reliability of the Liverpool Respiratory
Symptom Questionnaire for a Swedish context*

Cecilia Mårtensson, leg. Sjukgymnast

Handledare: Pia Ödman

SAMMANFATTNING

Bakgrund; Andningsrelaterad problematik är vanligt hos barn med flerfunktionsnedsättning och det påverkar både barnets och familjens mående. I nuläget finns inget sätt att på svenska kartlägga dessa besvär och den effekt de har på familjen.

Syfte; Syftet med studien har varit att översätta, kulturellt anpassa samt validera och reliabilitetstesta Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire – Flerfunktionsnedsättning, LRSQ-F, för barn med flerfunktionsnedsättning till svenska förhållanden.

Metod; Kognitiva intervjuer samt kvantitativ skattning av frågeformuläret med Content Validity Index (CVI) av både experter och föräldrar till barn med flerfunktionsnedsättning. Stabilitet mellan två mättillfällen undersöktes med test-retest.

Resultat; LRSQ-F bedömdes ha god innehållsvaliditet gällande begriplighet/relevans av experter efter kulturell anpassning av skalan: S-CVI/UA (UA=Universal Agreement) = 0.80/0.93 och S-CVI/Ave (Ave=Average) = 0.98/0.99 samt av föräldrar: S-CVI/UA (UA=Universal Agreement) = 0.93/0.86 och S-CVI/Ave (Ave=Average) = 0.99/0.97. Test-retest reliabilitet Cohens Kappa Score (viktad) =0.73.

Konklusion; LRSQ-F anses vara valid och reliabel samt användbar i en svensk kontext och kan bidra med väsentlig information om barnets andningsrelaterade problematik samt både barnets och familjens mående. Det är av vikt att ta med även föräldrar mående då det är de som vårdar barnet.

NYCKELORD: Kulturell validering, Innehållsvalidering, Reliabilitetstest, Frågeformulär, Andning.

ABSTRACT

Background; Breathing related problems are common among children with Profound Intellectual and Multiple Disabilities, PIMD, and it effects the wellbeing of the child as well as the parents. We have no questionnaire that covers this kind of questions in Sweden today.

Aim; The aim of this study was to translate, cross-culturally adapt as well as to validate the latest version of Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire for a Swedish context.

Methods; Cognitive interviews and quantitative valuation of the questionnaire using Content Validity Index (CVI) with both experts and parents of children with PIMD. Stability between two occasions was measured using test-retest.

Results; Experts thought the latest version of LRSQ to be valid after cross-cultural adaptation S-CVI/UA (UA=Universal Agreement) = 0.80/0.93 and S-CVI/Ave (Ave=Average) = 0.98/0.99 and by parents S-CVI/UA (UA=Universal Agreement) = 0.93/0.86 and S-CVI/Ave (Ave=Average) = 0.99/0.97. Test-retest reliability Cohens Kappa Score (weighted) = 0.73.

Conclusions; The latest version of LRSQ is thought to be valid and reliable and useful in a Swedish context. It can contribute valuable information about the respiratory problems of child itself as well as the wellbeing of both the child and the family as a whole. It is important to consider the wellbeing of the parents as it is they who tend to the child.

Innehållsförteckning

1. Bakgrund.....	5
1.1 Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire.....	5
1.2 Flerfunktionsnedsättning och andningsrelaterade besvär	5
1.3 Påverkan på familjen.....	8
1.4 Validitet, reliabilitet och kulturell anpassning	9
1.5 Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire.....	10
1.6 Kunskapslucka	12
2. Syfte.....	12
3. Metod.....	12
3.1 Urval	13
3.2 Genomförande	14
3.3 Analyser	16
3.4 Etiska överväganden	17
4. Resultat	17
4.1 Resultat experter.	17
4.2 Resultat Föräldrar.....	20
5. Diskussion	23
6. Konklusion	26
Referenslista;.....	26
Bilaga 1.....	33
Bilaga 2.....	36
Bilaga 3.....	38
Bilaga 4	40
Bilaga 5	41

1. Bakgrund

1.1 Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire

Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire (LRSQ) är ett frågeformulär som undersöker andningsrelaterade symptom dagtid och nattetid; hur symptomen påverkar barnet fysiskt och generellt i det dagliga livet samt hur hela familjens liv påverkas (1–3). Formuläret efterfrågar symptom på andningssvårigheter som rosslig andning, problem med slem och vilken hjälp barnet behöver för sin andning. Det efterfrågar även hur dessa besvär påverkar barnet och familjen, deras hälsa, ork och förmåga till återhämtning. Formuläret har utvecklats vid Alder Hey barnsjukhus i Liverpool, Storbritannien, och finns inte översatt till något annat språk (1,3,4). Den senaste versionen av LRSQ vänder sig till föräldrar med barn med flerfunktionsnedsättning och andningsrelaterade besvär. En randomiserad studie för denna version är genomförd och den var planerad att publiceras under 2020. Den har dock inte publicerat ännu. Resultaten från den studien var överensstämmande med tidigare studier (muntlig information P. S McNamara 190529). I dagsläget finns inget liknande formulär att tillgå på svenska. Frågeformulär som översätts från ett språk till ett annat behöver validitets prövas och kulturellt anpassas för att säkerställa dess överförbarhet (5)

1.2 Flerfunktionsnedsättning och andningsrelaterade besvär

Socialstyrelsen beslutade 2020 att termen ”flerfunktionsnedsättning” definieras enligt följande;

”Flerfunktionsnedsättning avser oftast en kombination av omfattande intellektuell och motorisk funktionsnedsättning som orsakar stora kommunikationssvårigheter och oförmåga att själv tillgodose grundläggande behov. Den motsvarande internationella benämningen är PIMD (Profound Intellectual and Multiple Disabilities). Funktionsnedsättningens grad kan anges med hänvisning till klassifikationer såsom DSM-5 och Gross Motor Function Classification System (GMFSC).

Ibland används ”flerfunktionsnedsättning” i betydelsen ’flera funktionsnedsättningar’, utan precisering av funktionsnedsättningarnas art eller allvarlighetsgrad. ”Flerfunktionsnedsättning” används alltså i olika betydelser. Det innebär att om man vill vara precis måste man tydliggöra vilken betydelse som avses” (6)

Då begreppet flerfunktionsnedsättning består av många olika tillstånd och diagnoser med olika etiologi (7,8) är det svårt att uttala sig om prevalensen gällande denna grupp. Enligt information på Habilitering & Hälsas (Region Stockholm) informationssida saknas aktuella siffror men det uppskattas att det finns 60-80 personer per 100 000 invånare med flerfunktionsnedsättning i Sverige (9). En flerfunktionsnedsättning orsakas dock alltid av en svår hjärnskada som i sin tur oftast orsakas av en utvecklingsavvikelse i hjärnan under fostertiden. Orsaken till

avvikelsen kan vara en blödning, syrebrist, infektion eller kromosomavvikelser. Skadan kan även uppstå i samband med en komplicerad förlossning (7,9).

Den största gruppen barn med omfattande rörelsenedsättningar och som befinner sig på en tidig utvecklingsnivå är barn med den svåraste varianten av cerebral pares (CP) (10). Rosenbaum et. al publicerade 2006 en rapport där man utvidgat definitionen av CP att även omfatta problem med syn, hörsel, känsel, perception, kognition, kommunikation, beteende, epilepsi och sekundära muskuloskeletal problem, förutom motoriska problem (11). GMFCS (Gross Motor Function Classification System) är ett klassificeringssystem för att bedöma den fysiska funktionsnivån hos personer med CP och är indelat i fem nivåer där nivå I innebär att man går självständigt på alla underlag till nivå V som innebär att man inte har någon egen förflyttning utan man blir körd i rullstol (12,13). Prevalensen för CP alla nivåer i Sverige och övriga utvecklade länder är 2-3 per 1000 födda (10,14) och av dessa är det 16 % som klassas som GMFCS V (10).

De flesta barn med flerfunktionsnedsättningar har friska lungor men på grund av deras nedsatta motorik och oförmåga till fysisk aktivitet är risken stor att de får problem med andningen (14–22). Respiratoriska problem är en signifikant orsak till morbiditet och mortalitet hos barn med flerfunktionsnedsättning och har en stor påverkan på livskvalitén (7,20).

Faktorer som ökar risken för andningsproblematik, och som är vanligt förekommande vid flerfunktions-nedsättningar, är; förekomst av epilepsi (15,17), sväljproblematik som kan leda till att barnet sväljer fel (3,17,21,23), svag hostkraft och nedsatt kraft i andnings-muskulaturen (17,18,23) samt skolios (14,17,19,23). Aspiration, när partiklar eller vätska hamnar i luftstrupen i stället för matstrupen (sätta i halsen), är vanligt förekommande hos barn med flerfunktionsnedsättningar. I de flesta fall (94 %) är aspirationen tyst, det vill säga att barnet hostar eller harklar sig inte, och därför märks det inte alltid att barnet har aspirerat (21). Flera barn med flerfunktionsnedsättning äter inte själva utan får sin näring via en gastrostomi (man får maten direkt in i magsäcken) (23). Detta tar dock inte bort risken att aspirera saliv, eventuella uppstötningar eller slem från de övre luftvägarna (17,21). I en studie av Trinik et. al. undersökte man förekomsten av mikrober som vanligtvis finns i munhålan på normalutvecklade barn. Hos barn med flerfunktionsnedsättningar fann man dessa mikrober även i de nedre luftvägarna, vilket de tolkade som ett tecken på aspiration (3). Felställningar i ryggraden, skolios, är en annan vanlig komplikation vid flerfunktionsnedsättningar. Skoliosen kan leda till att andningsmuskulaturen inte kan arbeta optimalt och rörligheten i bröstkorgen minskar. En studie av Seddon et al. (20) visade att om skoliosen finns redan i tidig barndom så påverkar den även lungornas utveckling. Även om barnet inte har en skolios så kan barn med spasticitet, till exempel vid CP, ha sämre rörlighet i sin bröstkorg jämfört med normalutvecklade barn (24). Spasticiteten, även om den inte är så påtaglig, påverkar också förmågan att samordna de olika delarna i andningsmönstret så att andningen blir oregelbunden (24). Ett ytterligare problem hos barn med flerfunktionsnedsättning är att de har nedsatt muskelkraft. Kansra et al. (8) påtalade i en studie att det inte är säkert att barnet visar tecken på att ha andningsproblem på grund av den nedsatta muskelkraften. Barn med nedsatt kraft tar inte så djupa andetag och tidalvolymen, den volym luft man andas ut och in i ett normalt vilandetag, är reducerad hos de med nedsatt motorisk förmåga. De som inte ens kan sitta självständigt har den lägsta tidalvolymen och Ishida et al.(25) kunde i sin studie påvisa att det finns ett samband mellan tidalvolymen och vitalkapaciteten, den största

möjliga volym man kan andas ut (25). Det är även svårt att få till en effektiv hoststöt med nedsatt muskelkraft (26). I de flesta fall är det svårt att säga vad som är den bakomliggande orsaken till andningsproblematiken då många av barnen har flera olika problem och de interagerar med varandra (14,16–19,21–23) Det är dock viktigt att uppmärksamma problemen i tid så att de inte orsakar permanenta skador på lungorna (27).

1.2.1 Behandlingsmetoder, fysioterapi

Fysisk aktivitet och lägesförändringar är de aktiviteter som får andningscentrum att reagera direkt (28). Genom att variera position kan möjligheterna till förbättrad ventilation optimeras. Lägesändringar stimulerar till djupandning och fler delar av lungan ventileras (14,19,22,29). I en studie av Littleton et al. (22) som utfördes på 5 barn med CP och svår skolios såg man, förutom att saturationen ökade signifikant i sittande, att barnen blev mer alerta och aktiva. Ett av barnen kunde även slappna av bättre (22). Det är viktigt att hitta metoder som gör det lättare att eliminera (evakuera) eventuellt slem och hålla luftvägarna fria. Det måste vara metoder som är lätta att utföra och som inte kräver aktiv medverkan av barnet (18,20). Ett exempel på en metod är Positive Expiratory Pressure (PEP)(16,18,29,30). PEP kan användas för att få till djupare andetag och därmed en bättre ventilation (18,31). Barnet får andas i en mask som har en ventil med ett individuellt anpassat motstånd på utandningen för att stimulera till att ta djupare andetag (18,31). Lagerkvist et al. (18) genomförde en studie där effekten av PEP utvärderades på 17 barn med flerk Funktionsnedsättningar, ingen av barnen hade någon egen förflyttning och endast ett barn kunde medverka aktivt. De fann att en del av barnen inte accepterade PEP-masken direkt men efter att ha vant sig med masken fungerade det sedan bra. De fann även att syrenivåer i blodet ökade då barnen använde PEP. Syrenivån mättes transkutant före och efter PEP behandlingen (18).

1.2.2 Behandlingsmetoder, medicin

Bland de medicinska behandlingsmetoderna används olika slemlösande och luftrörsvidgande mediciner att inhalera (32). Det finns också olika sorters icke-invasiv ventilering, vilket betyder att man har en mask över näsa och mun. Continuous Positive Airway Pressure (CPAP) är en ventilator som ger ett positivt tryck under hela andningscykeln. CPAP kan användas med mask eller munstycke. Det positiva trycket gör att luftvägarna hålls öppna och den funktionella residualkapaciteten (FRC), det vill säga den mängd luft som finns kvar i lungan efter en normal utandning, höjs och bidrar även till att andningsmuskulaturen avlastas (33,34). BiLevelPAP liknar CPAP men ger ett kraftigt positivt tryck på inandningen och ett lägre positivt tryck på utandningen (15,33,34). Mekanisk insufflation-exsufflation (MIE), även kallad hostmaskin, är en maskin som ger ett kraftigt positivt tryck på inandningen och sedan växlar det snabbt till ett negativt tryck. Tekniken efterliknar en naturlig hoststöt och hjälper till att evakuera slemmet (35).

Föreningens Sveriges Habiliteringschefer publicerade 2018 en systematisk litteraturstudie på sin hemsida. Syftet med litteraturstudien var att undersöka den evidens som finns för olika behandlingsmetoder som används inom habiliteringen för att förbättra respirationen hos barn, ungdomar och vuxna (36). Granskningen initierades av föreningen och Anna-Lena Lagerkvist, specialistfysioterapeut och

medicine doktor, utsågs till projektledare. Arbetsgruppen bestod av fem fysioterapeuter, som arbetar inom habiliteringen i Sverige, och som valts ut då de besitter god kunskap i ämnet. Det var 86 artiklar som granskades och 68 inkluderades, av de inkluderade artiklarna tog endast två upp gruppen flerfunktionsnedsättning (18,25). Övriga diagnosgrupper som undersöktes var neuromuskulära sjukdomar, CP, Myelomeningocele (MMC), Retts Syndrom och Downs Syndrom (DS), diagnosgrupper med stor risk för aningsrelaterade besvär. Slutsatsen av rapporten blev att det finns flera olika behandlingsmetoder som kan vara användbara för habiliteringens målgrupper. Behandlingsmetoderna som framför allt rekommenderades för att evakuera slem var fysisk aktivitet, PEP och MIE. Det finns dock inte så mycket evidens från forskningen utan mycket baserades även på klinisk erfarenhet http://habiliteringisverige.se/arkiv/ebh_report/metoder-for-att-forbatta-respirationen-hos-barn-ungdomar-och-vuxna-inom-habilitering (36).

1.3 Påverkan på familjen

Ett flertal studier har visat på att det är viktigt att lyssna till föräldrarna och deras beskrivning av barnets situation samt att hela familjen behöver tas hänsyn till i behandlingen av det flerfunktionsnedsatta barnet och dess andningsrelaterade problematik (8,37–39). I en studie av Rahi et.al. (39) studerade de ett nytt sätt att bemöta familjer i samband med att deras barn fick diagnos gällande synnedsättning. Det nya var att de implementerade en tjänst på sjukhuset dit familjen kunde vända sig till med alla sorters frågor. Denna person fanns där för socialt och emotionellt stöd men kunde även bidra med mycket information gällande diagnosen och hade tid och möjlighet att prata länge med föräldrarna. Föräldrarna rapporterade att de uppskattade denna möjlighet till mer information och att ha tiden att sitta ner och prata tills de verkligen förstått (39). Liknande resultat påvisades i en annan studie (37) där de undersökte föräldrar till barn med CP. Det man kom fram till i den studien var att det är minst lika viktigt att ta hand om familjen som om barnet eftersom det är föräldrarna som sköter mycket av den dagliga vården. I studier gjorda av Fitzgerald et al. (40) och Trinick et al.(3) har man kunnat påvisa att det finns en påverkan på livskvalitén hos föräldrar till flerfunktionsnedsatt barn då de behöver anpassa sig till barnets andningsproblematik. Liknande resultat framkom i en studie gjord av Carnevale et al. (38) där man intervjuat föräldrar till barn som är beroende av hemventilatorer. Pelke et.al (41) publicerade 2021 en studie där de tagit fram frågeformuläret The Family-Centered Multidimensional Outcome Measure for Pediatric Palliative Care (FACETS-OF-PPC). Detta frågorformulär baserades på en tidigare studie där en annan forskargrupp, med delvis samma författare, tagit fram frågor som ansågs relevanta (42). Anledningen till att frågeformuläret skapades var att det saknas omfattande utfallsmått inom vården för flerfunktionsnedsatta barn som fokuserar både på barnets och familjens situation, något som anses ha stor relevans för att utvärdera behandlingen. Trots att man sett att hela familjens mående påverkar utfallet av den behandling barnen får, hade något liknande formulär inte funnits att tillgå tidigare. Den första studien (42) där de tog fram underlaget till frågeformuläret, var en kvalitativ studie. Sex faktorer framkom vid analysen av data från föräldrarna varav en viktig faktor var barnets symptom. Det poängterades att man behöver kunna kontrollera symptomen innan man kan ta tag i andra frågor (42). Övriga faktorer som deltagande föräldrar i studien identifierade som viktiga för vården av deras barn och hur de själva som föräldrar mår var, förutom symptomen, socialt deltagande av barnet, normalitet, socialt nätverk, hur man hanterade

sjukdomen/funktionsnedsättningen samt vårdgivarnas kompetenser. Fokus för vården behöver ligga på hela familjen, inte bara barnet (41,42).

1.4 Validitet, reliabilitet och kulturell anpassning

För att säkerställa att ett frågeformulär som används är det som bör användas undersöks att frågorna verkligen undersöker det som de ska undersöka, validitet, och hur tydliga frågorna är, reliabilitet (5,43–45). När sedan ett frågeformulär ska översättas från ett språk till ett annat ligger inte svårigheten i att översätta det ordagrant. Svårigheten ligger i att anpassa det till det sammanhang det ska fungera i utan att det förlorar i syfte och mening (5,46). Med reliabilitet menas tillförlitlighet/reproducerbarhet. Ett frågeformulär kan anses vara reliabelt om personerna som svarar på frågorna svarar på samma sätt vid olika tillfällen, förutsatt att grundförutsättningarna inte har förändrats (47). Test-retest kan användas för att bedöma stabiliteten i svaren; samma person får svara på samma frågeformulär med 1- 2 veckors mellanrum och svaren bör då stämma överens om inget har förändrats gällande det som efterfrågas (43,45,47).

Validitet (giltighet) betyder att vi mäter det vi tänkt mäta. Validiteten kan undersökas utifrån olika aspekter (43,44,47). Ytvaliditet, face validity, är en den enklaste formen av innehållsvaliditet. Det beskriver professionellas värderingar av om det mäter viktiga aspekter av det som undersöks (43,44). Ytvaliditet kan vara relevant att undersöka då en testperson kan behöva uppfatta frågeformuläret som relevant för att bli motiverad till att besvara det. Innehållsvaliditet innebär att alla delfrågor är relevanta och tillsammans speglar det fenomen som mäts. Detta kan påvisas genom att en grupp experter granskar frågorna i formuläret och bedömer det som relevanta för frågeformuläret och för den tilltänkta målgruppen. Alla frågor behöver vara relevanta för att slutresultatet ska vara giltigt (5,44,47). Innehållsvaliditet undersöks genom att undersöka uppgifternas interna överensstämmelse. Intern konsistens används för att undersöka om de svar som uppnåtts är logiska och konsistenta. Det är ett sätt att undersöka reliabilitet och begreppsvaliditet (44,48).

Kriterievaliditet hos ett frågeformulär når man genom att jämföra det nya formuläret med ett redan existerande som anses ligga så nära sanningen som det går, ett så kallat gold-standard. I de fall det inte finns ett gold-standard att förhålla sig till jämför man två grupper, som inte bör vara lika, för att undersöka om frågeformuläret kan skilja grupperna från varandra (44,45). För att undersöka om det finns skillnader mellan två grupper inom målgruppen används diskriminativ validitet (44).

Frågeformulär som översätts från ett språk till ett annat behöver anpassas kulturellt för att frågorna ska bli tillförlitliga och giltiga. Det kan hända att innebörden av en fråga ändras om man översätter den ordagrant eller ställer frågor om ett fenomen som inte existerar i den kulturen. Den översatta versionen behöver ha samma grad av reliabilitet och validitet som ursprungsversionen (5). Målsättningen är att den slutgiltiga versionen är lättbegriplig och att det inte finns risk för feltolkningar. En generell rekommendation för formulär är att de ska kunna besvaras av en person med läsförmåga motsvarande en 12-åring (5).

För att få en djupare förståelse för hur frågorna tolkas och uppfattas används en kvalitativ analysmetod av de öppna frågorna. Genom kvalitativ analys kan man få

svar på frågor som inte går att mäta kvantitativt (49). Det är även en del av den kulturella anpassningen, att undersöka hur frågorna uppfattas i den nya kontexten (47).

1.5 Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire

Det finns ett antal frågeformulär som undersöker andningsrelaterade besvär och dess påverkan på livet hos vuxna (50,51). Det fanns dock inget frågeformulär som var utvecklat för att undersöka andningsrelaterade besvär hos barn och hur besvären påverkar familjen innan LRSQ utvecklades (1). Sex barnläkare som arbetar med andningsrelaterade besvär vid Alder Hey Children's Hospital i Liverpool har tagit fram och utvecklat detta frågeformulär sedan 2002 (1).

1.5.1 Framtagning av frågeformuläret

Det ursprungliga formuläret (1), som gällde barn med astma, var indelat i totalt åtta domäner. Formuläret skickades hem till föräldrar så att det kunde fyllas i och tas med tillbaka till besöket på lungkliniken. De fem första domänerna undersökte symptom som väsande andning, hosta, slem och andnöd dagtid, nattetid, vid förkylning, mellan förkylningar och i samband med fysisk aktivitet (1). Varje domän bestod av tre till fem uppgifter som skattades på en femgradig Likertskala. Den sjätte domänen undersökte ytterligare symptom som till exempel takypné, det vill säga en ökad andningsfrekvens. I de två sista domänerna undersöktes även hur dessa andningsrelaterade besvär påverkar barnets sömn, förmåga att äta och fysiska aktivitet men även familjens sömn och eventuella anpassningar som behövde göras i familjens aktiviteter (1).

I studien användes Cronbach alpha för att analysera uppgifternas interna konsistens, för att besluta om nivåerna ansågs vara tillförlitliga (reliabla) och visade acceptabel överensstämmelse definierades alpha score ≥ 0.7 vara acceptabelt, ≥ 0.81 , bra och ≥ 0.91 utmärkt (1). Domänerna symptom dagtid fick högst värde alpha scores 0.95 och symptom nattetid lägst alpha score 0.80, påverkan av symptomen på familjen och symptomens påverkan på barnet fick båda höga alpha scores 0.91 respektive 0.87 (1). LRSQ visade sig vara känsligt för att upptäcka andningsrelaterade besvär hos barn. Det visade även på stark kriterievaliditet, god intern konsistens och framför allt så var det praktiskt och acceptabelt för föräldrar att använda (1,3,52). Trinick et al (4) publicerade 2012 en studie där de använt sig av samma frågeformulär (LRSQ) men denna gång för patienter med cystisk fibros (CF). Syftet med studien var att undersöka den diskriminativa validiteten, om de kunde differentiera barn med CF från normalpopulationen (4). Det visade sig att frågeformuläret kunde differentiera barn med CF från normalpopulationen även när barnen med CF var inne i en bra period. De kunde även differentiera stabila barn med CF från barn med CF som var inne i en dålig period (4). I båda studierna (1,4), för barn med astma och för barn med CF, har man använt sig av en totalpoäng på hela testet, max 128 poäng. Barn med astma eller CF fick signifikant högre poäng jämfört med kontrollgrupperna (1,4).

1.5.2 Utveckling av frågeformuläret

LRSQ användes i ytterligare en studie av Trinick et al (3) som publicerades 2015. Syftet med den studien var att undersöka barn med flerfunktionsnedsättning; om det finns ett samband mellan andningsrelaterade besvär, inflammation i luftvägarna och vilken sorts bakterier som förekommer i luftvägarna (3). De använde sig av samma frågeformulär som tidigare för att undersöka de andningsrelaterade besvären men tog bort domänen med fysisk aktivitet. Detta gjordes för att barnen de ville undersöka har nedsatt förmåga till egen fysisk aktivitet. Maximal poäng blev 108 poäng och de kallade den versionen LRSQ-Neuro (3). I studien jämfördes barn med flerfunktionsnedsättning som vårdades på intensivvårdsavdelning med barn med samma grundproblematik som kom in till sjukhuset för att genomgå en inplanerad operation (elektiv kirurgi). Båda dessa grupper jämfördes med en normalpopulation. Som förväntat skattade gruppen som vårdats på intensivvårdsavdelning högst, men det var även statistiska skillnader mellan gruppen för elektiv kirurgi och normalpopulationen (3). Patienterna som skulle genomgå elektiv kirurgi skattade signifikant högre i alla domäner jämfört med normalpopulationen, förutom domänen symptom av förkylning. De domäner som nådde de högsta värdena av statistisk signifikans var effekt av symptom på familjen ($p=0,001$) och symptom nattetid ($p=0,004$) (3). De konstaterade att LRSQ kunde bidra till att identifiera andningsrelaterade problem hos barn med flerfunktionsnedsättning även hos de som ansågs friska nog att genomgå elektiv kirurgi. LRSQ kan även användas för att identifiera patienter som behöver specialiserade insatser gällande sina respiratoriska problem enligt författarna till studien men detta behöver undersökas vidare (3).

1.5.3 Fortsatt utveckling av frågeformuläret

För att ytterligare anpassa frågeformuläret för barn med flerfunktionsnedsättning har forskargruppen konstruerat ett nytt frågeformulär, med det gamla formuläret LRSQ-Neuro som utgångspunkt. Det nya formuläret är mer anpassat för barn med flerfunktionsnedsättning och syftet med det är att försöka hitta patienter i riskzonen för andningsrelaterade besvär tidigt. De första versionerna av LRSQ designades för att upptäcka symptom under en tremånadersperiod (1,3,4). Den version som detta arbete undersökte utvärderar de andningsrelaterade symptomen den senaste månaden, den kortare tidsintervallen valdes då problematiken kan variera mycket och det är svårt för föräldrar att komma ihåg hur det varit en längre tid tillbaka (muntligt information P. S McNamara 181023). För att särskilja det nya formuläret från tidigare publicerade versioner kommer det att kallas LRSQ-F (LRSQ – flerfunktionsnedsättning) i detta arbete. LRSQ-F består av 15 frågor som efterfrågar barnets andningsrelaterade besvär och hur det har påverkat familjen den senaste månaden. Alla frågor ska besvaras även om barnet under den senaste månaden inte har haft några andningsrelaterade besvär d.v.s. mått bra och frågorna inte upplevs relevanta. Frågorna är indelade i tre domäner; 1. Dagtid under den senaste månaden, 2. Nattetid under den senaste månaden, 3. Påverkan på hälsa och välbefinnande hos barn och vårdnadshavare. Frågorna besvaras på en ordinalskala med 5 skalsteg. De 15 frågorna som ingår i LRSQ-F poängsätts 0-4 och räknas samman till ett totalscore som ger max 60 poäng (Bilaga 1). LRSQ-F tillsammans med tidigare versioner av LRSQ har beskrivits ha potential att belysa frågan på ett nytt sätt då man inte endast tar hänsyn till symptomen utan också hur symptomen påverkar både barnet och

familjen i det dagliga livet (1,3,4). LRSQ-Neuro, som är föregångaren till LRSQ-F, föreslås ha potential för att användas kliniskt för att identifiera patienter med signifikanta respiratoriska problem då den är mer specifikt inriktad till barn med flerfunktionsnedsättning, men instrumentets känslighet för att mäta effekter av insatser har inte undersökts (3).

1.6 Kunskapslucka

Det finns i dagsläget inget formulär i Sverige som beskriver barns med flerfunktionsnedsättnings andningsrelaterade besvär och dess påverkan på barnet och familjen. LRSQ – F är en vidareutveckling av LRSQ och LRSQ- Neuro. Ingen av de tidigare versionerna av det föräldraskattade frågeformuläret LRSQ (1,4) eller LRSQ-Neuro (3), som fångar upp dessa domäner, finns i dagsläget översatta till svenska. Då LRSQ, och LRSQ-F, har visat sig vara ett frågeformulär som kartlägger just de frågorna syftar denna studie på att översätta, kulturellt anpassa och genomföra en första validering och reliabilitets testning av formuläret så att det går att använda i en svensk kontext.

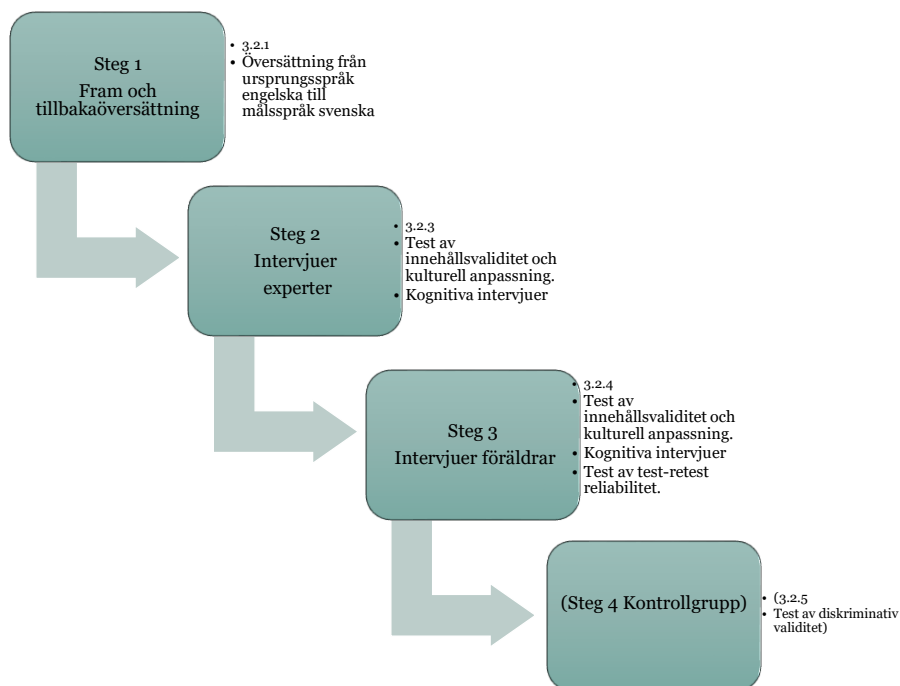
2. Syfte

Syftet var att översätta, kulturellt anpassa, validera och reliabilitetstesta Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire – Flerfunktionsnedsättning, LRSQ-F, för barn med flerfunktionsnedsättning till svenska förhållanden.

3. Metod

I denna studie översattes, validitets- och reliabilitetstestades och kulturellt anpassades LRSQ-F (Bilaga 1) från engelska till svenska och svenska förhållanden i tre olika steg (Figur 1). Kvantitativa och kvalitativa metoder har använts.

Figur 1



Figur 1; Genomförandeprocess för att översätta, validera, reliabilitetstesta och kulturellt anpassa Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire – Flerfunksionsnedsättning, LRSQ-F. Steg 1-3 har genomförts i denna studie.

Vid intervjutillfällena gjordes en kvantitativ skattning av frågornas relevans och begriplighet som sedan följdes upp med öppna frågor där kognitiv intervjuteknik användes. Detta för att samla in kvalitativa data om relevans, begriplighet och synpunkter på formulärets användbarhet (52), se Figur 1. Författaren till denna studie har fått tillåtelse av författarna till ursprungsformuläret att utföra denna studie. Författaren har även fått ta del av frågeformuläret LRSQ-F innan det publicerats.

3.1 Urval

3.1.1 Inklusionskriterier experter (Steg 2)

Läkare och fysioterapeuter på lung- eller neurologklinik som regelbundet behandlar och träffar barn med flerfunksionsnedsättningar och kliniskt verifierade andningsrelaterade besvär inkluderades. Exempel på andningsrelaterade besvär kan vara rosslig andning, svårt att evakuera slem, underventilation mm (Figur 1). Ett strategiskt urval eftersträvades.

3.1.2 Inklusionskriterier föräldrar (Steg 3)

Föräldrar till barn med flerfunksionsnedsättning och någon form av andningsrelaterade besvär i åldern 3–18 år. En stor åldervariation eftersträvades då föräldrar till barn i olika åldrar förväntas ha olika erfarenheter gällande barnens

andningsrelaterade besvär, hur det kan påverka barnet själv såväl som hela familjen (Figur 1). Informanterna behövde även vara kunniga i det svenska språket då ingen tolk kommer att kunna användas.

3.1.3 Exklusionskriterier föräldrar (Steg 3)

Föräldrar där författaren är behandlande sjukgymnast till deras barn.

Föräldrar till barn yngre är 3 år.

3.2 Genomförande

3.2.1 Fram- och tillbakaöversättning

Översättning från originalspråket, engelska, till målspråket, svenska, utfördes med metoden fram- och tillbaka översättning. Två översättare, författaren själv och en kollega översatte formuläret var för sig från engelska till svenska. Båda översättarna hade goda kunskaper i det svenska och engelska språket och är väl bekanta med patientgruppen. De båda översättningarna jämfördes sedan för att kombineras ihop till en slutgiltig version (5,53). En tillbakaöversättning från målspråket till originalspråket utfördes sedan av en auktoriserad översättare. Versionerna jämfördes sedan för att se att inget gått förlorat (52). Endast mindre språkliga anpassningar behövde göras då det är generella frågor i frågeformuläret som inte är anpassat efter ett särskilt sjukvårdssystem.

3.2.2 Rekrytering av informanter.

Författaren kontaktade läkare och fysioterapeuter som arbetar med patientgruppen för att fråga om deltagande i studien. Deltagarna fick muntlig information om studien i samband med förfrågan om att delta samt information gällande vad de förväntades att bidra med under intervjun. Författaren kontaktade även kollegor på habiliteringscenter i Region Stockholm, fysioterapeutkollegor som arbetar inom Habiliteringen på andra ställen i Sverige samt en journalist, som skriver om flerfunktionsnedsättningar, och som har ett stort personligt nätverk av föräldrar till barn med flerfunktionsnedsättning. De ombads kontakta föräldrar de har kännedom om som passar in på inklusionskriterierna. De föräldrar som sedan var intresserade av att delta i studien kontaktade sedan författaren och fick då mer information gällande studien. Fjorton föräldrar valde att delta i studien. Bakgrundsinformation om föräldrarna samlades in för att se att det blivit en bra spridning av informanter.

3.2.3 Intervjuer experter

För att pröva innehållsvaliditet och behov av kulturell anpassning av den översatta versionen genomfördes kognitiva intervjuer med åtta experter, fem läkare och tre fysioterapeuter som arbetar med pediatrika patienter på lung- eller neurologkliniker på tre olika sjukhus i tätort och landsort. Vid intervjutillfällena fick experterna först skriva på medgivande att delta i studien samt fylla i bakgrundsfrågor gällande hur länge de arbetat i sin profession och hur länge de arbetat med den aktuella patientkategorin.

Innehållsvaliditet undersöktes genom att experterna vid intervjutillfället bedömde varje fråga i LRSQ -F, på en fyrgradig skala gällande relevans och begriplighet på en Likertskala 1-4 (1=inte relevant/begriplig, 2=något relevant/begripligt, 3=relevant/begripligt, 4=mycket relevant/begripligt). Bedömningen dokumenterades i ett skattningsprotokoll (Bilaga 2). I samband med att experterna fyllde i detta ombads de att tänka högt kring frågorna för att fånga upp eventuella oklarheter eller generella kommentarer. De fick även besvara frågan gällande om de ansåg LRSQ-F vara användbart i klinisk verksamhet. Detta spelades in med diktafon för att kunna analyseras i efterhand.

3.2.4 Intervjuer föräldrar

Föräldrar till barn äldre än tre år inkluderades för att säkerställa att föräldrarna har erfarenhet av andningsrelaterade besvär samt dess effekt på barnet och familjen. Ett strategiskt urval eftersträvades. Elva barn med flerfunktionsnedsättning och deras familjer med erfarenhet av tjänster från habiliteringar i Sverige inkluderades. I tre av fallen intervjuades båda föräldrarna till barnet så sammanlagt var det fjorton föräldrar som intervjuades. Intervjuerna genomfördes i alla fall utom ett på distans via Teams. Det förekom ingen inspelning av bild, endast ljud spelades in med diktafon. Den intervju som inte genomfördes via Teams genomfördes på plats i familjens hem. Deltagarna fick innan intervjutillfället ett informationsbrev med information om studien och vad de förväntades att bidra med under intervjun. (Bilaga 3). De fick även skriva på ett informerat samtycke och skicka till författaren innan intervjutillfället (Bilaga 4). Vid intervjutillfället fick föräldrarna fylla i bakgrundsinformation om sig själva gällande sin relation till barnet (Bilaga 5), samt ett exemplar var av den översatta versionen av LRSQ-F (Bilaga 1) samt ett skattningsprotokoll (Bilaga 2) att fylla i.

Innehållsvaliditet undersöktes genom att föräldrarna vid intervjutillfället bedömde varje fråga i LRSQ -F, på en fyrgradig skala gällande relevans och begriplighet på en Likert skala 1-4 (1=inte relevant/begriplig, 2=något relevant/begripligt, 3=relevant/begripligt, 4=mycket relevant/begripligt). Bedömningen dokumenterades i ett skattningsprotokoll (Bilaga 2). I samband med att de fyllde i detta ombads de att tänka högt kring frågorna för att fånga upp eventuella oklarheter eller generella kommentarer. Föräldrarna fick även besvara frågan om de ansåg LRSQ-F vara användbart. Bakgrundsinformation, LRSQ-F och skattningstabellen skickades sedan till författaren i ett förfrankerat kuvert och i de fall intervjuerna genomfördes på plats samlades de in. Bakgrundsinformation och ifyllda formulär samt inspelningar på USB-minnen och sammanfattningar av de kognitiva intervjuerna förvarades inlåsta och kodade. Endast författaren och handledaren hade åtkomst till materialet.

3.2.4.1 Test-retest reliabilitet

För att undersöka stabiliteten mellan två mättillfällen (test-retest) fick de deltagande föräldrarna ytterligare ett formulär att fylla i två till tre veckor efter den första enkäten besvarats i samband med intervjutillfället. Informanten fick även med ett förfrankerat svarskuvert och informerades vid intervjutillfället om att påminnelse skulle komma.

3.3 Analyser

3.3.1 Statistisk analys

Content Validity Index (CVI) användes för den deskriptiva statistiken av frågorna (52). CVI är den metod som oftast används för att beräkna innehållsvaliditet kvantitativt för frågeformulär (52,54). Samtliga frågor i LRSQ-F har bedömts och skattats av samtliga informanter. Resultatet för experter och föräldrar som informanter beskrivs var för sig. Informanten besvarar och gör en bedömning av varje fråga i LRSQ-F och dess svarsalternativ där relevans och begriplighet bedöms enligt de ovan nämnda Likertskalorna. Frågor som skattas 3 eller 4 på Likertskalan (Bilaga 2) bedömdes vara relevanta och begripliga och användes för att räkna ut ett CVI score. Frågor som skattades 1 eller 2 klassades som inte begripliga/relevanta. Summan av antalet individer som skattat 3 eller 4 dividerades med det totala antalet individer som skattat varje fråga. Frågan anses vara relevant om den erhåller ett I-CVI score ≥ 0.79 , värde mellan 0.70-0.79 innebär att frågan behöver revideras och ett värde under 0.70 innebär att frågan behöver exkluderas (52,55). CVI beräknades för både varje item för sig, I-CVI, och för frågeformuläret (Scale) som helhet, S-CVI. Två mått för S-CVI beräknades, S-CVI/UA (UA=universal agreement) och S-CVI/Ave (Ave=Average). För att beräkna S-CVI beräknades medelvärdet av andelen som besvarat de 15 frågorna i LRSQ-F som relevanta och begripliga (52). Ett S-CVI/UA score ≥ 0.8 och ett S-CVI/Ave score ≥ 0.9 anses ha utmärkt innehållsvaliditet.

Test-retest reliabilitet analyserades med Cohens Kappa Score (viktad) för att undersöka proportionerna av överensstämmelse mellan två mättillfällen. Kappa scores $>0,75$ betraktas som mycket god överensstämmelse mellan två mättillfällen, 0,4-0,75 måttlig till god överensstämmelse och $<0,4$ måttlig till låg överensstämmelse (45).

3.3.2 Kvalitativ analys

Kognitiva intervjuer genomfördes vid intervjutillfällena. Kognitiva intervjuer är den teknik som används mest för att testa frågeformulär och metoden har blivit internationellt etablerad (43,56). Det finns två olika varianter av intervjuteknik då man använder sig av kognitiva intervjuer, tänka högt och reflektionsfrågor. Tänka högt innebär att respondenten ombeds att tänka högt då den besvarar frågorna i formuläret och intervjuaren håller sig mer passiv och enbart tar in det respondenten "säger" (43,56). Reflektionsfrågor innebär att intervjuaren ställer följdfrågor efter det att några eller alla frågor har besvarats för att få till en diskussion gällande hur frågorna uppfattats (43,54,56). I detta arbete har en kombination av dessa två varianter använts vilket verkar vara det vanligaste tillvägagångssättet. De kognitiva intervjuerna spelades in med diktafon för att kunna analyseras i efterhand. Författaren sökte vid genomlysningen efter synpunkter relaterade till koncepten begriplighet, relevans, innehåll och om frågeformuläret LRSQ-F upplevdes som användarvänligt i en svensk kontext. De kommentarer som passade in på de eftersökta koncepten skrevs ner. Efter det sammanfattades kommentarerna från alla intervjutillfällen, experter för sig och föräldrar för sig.

3.4 Etiska överväganden

LRSQ och de olika versionerna av det har fått etiskt godkännande i Storbritannien av en lokal etisk kommitté. Denna studie har fått godkänt av Etikprövningsmyndigheten; ”Etikprövningsmyndigheten godkänner den forskning som anges i ansökan. Dnr 2020–02466”.

Författaren till denna studie har sin anställning inom Habilitering och Hälsa, Region Stockholm. Forsknings och Utvecklingsavdelningen står bakom Etikansökan och därmed står chefen för den avdelningen, Tatja Hirvikoski, som ansvarig forskare för projektet. Denna studies författare, Cecilia Mårtensson, och handledare Pia Ödman, enheten Fysioterapi, Linköpings Universitet, står som medverkande forskare i projektet i etikansökan. Anonymiteten i studien säkerställs genom att hålla det så avkodat som möjligt och inte ta med några uppgifter som kan vara identifierande. Det var frivilligt att besvara frågeformuläret och de som svarade på det måste förstå syftet med frågorna och vad de ska användas till. De informerades om den förväntade nyttan av formuläret samt vad de förväntades göra. De informerades även om att informationen skulle användas i en Masteruppsats och att ingen ekonomisk ersättning utgick. Informationsbrevet innehöll även information gällande frivillighet att delta i studien, vad den förväntade insatsen var samt att man kan avbryta sitt deltagande när man vill utan att motivera varför. Författaren såg inga risker med deltagande i studien men om det framkom uppgifter under intervjuerna gällande eventuell behandling som barnet skulle behöva fick den föräldern information om vart de kunde vända sig. Inga sådana uppgifter framkom. Ifyllda formulär och skattningsskalor samlades in antingen på plats eller skickade in med post, kodades och förvarades i ett låst journalskåp. Medgivande att delta i studien, där namn på personen stod, förvarades separat så att det inte skulle gå att identifiera vem som svarat vad. Ljudupptagningar och transkriptioner bevarades på ett USB i ett låst journalskåp. Enbart författaren till denna studie hade tillgång till data för analys och handledning.

4. Resultat

4.1 Resultat experter.

4.1.1 Bakgrundsdata experter.

Det var åtta experter, fem läkare och tre fysioterapeuter, som skattade frågeformuläret gällande begriplighet och betydelsefullhet. Läkarna var specialiserade i bland annat barn- och ungdomsmedicin, allergologi, barnneurologi, anesthesiologi och intensivvård. Fysioterapeuterna hade sina specialiseringar i intensivvård eller pediatrik. Sju av åtta experter angav mer än tio års erfarenhet både av att arbeta med barn med andningsrelaterad problematik och barn med flerk Funktionsnedsättning, den åttonde experten angav 6-10 års erfarenhet av båda kategorierna. Av de åtta experterna var två män och sex kvinnor. Vid tre av intervjuerna medverkade två experter och två intervjuer utfördes med endast en expert.

4.1.2 Test av innehållsvaliditet och kulturell anpassning

Innehållsvaliditet

Alla åtta experter bedömde att frågeformuläret såg ut att mäta det som det beskrevs att mäta vid en första anblick så ytvaliditeten bedömdes som god. Innehållsvaliditeten bedömdes ytterligare med hjälp av svaren från skattningstabellerna (Tabell 1).

Gällande begriplighet erhöll 10 av 15 frågor I-CVI = 1.00. 13 av 15 frågor erhöll I-CVI > 0.80 och två frågor, fråga 4 och 8 erhöll I-CVI = 0.38 respektive 0.25.

Gällande betydelsefullhet erhöll 14 av 15 frågor I-CVI = 1.00.

En fråga erhöll I-CVI= 0.89, det vill säga samtliga frågor bedömdes ha god innehållsvaliditet gällande betydelsefullhet (Tabell 1).

LRSQ-F formuläret erhöll S-CVI/UA = 0.67 för begriplighet och S-CVI/UA = 0.93 för betydelsefullhet (Tabell 1).

LRSQ-F formuläret erhöll S-CVI/Ave = 0.88 för begriplighet och S-CVI/Ave = 0.99 för betydelsefullhet (Tabell 1).

Tabell 1 Experter. Antal experter som skattat LRSQ-F begriplighet och relevans (n=8).

FRÅGA BEGRIPLIGHET/RELEVANS	ANTAL SOM SKATTAT 3 EL 4	I-CVI
1. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
2. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
3. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
4. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	3/8	0.38/1.00
5. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
6. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
7. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	7/8	0.88/1.00
8. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	2/8	0.25/1.00
9. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
10. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
11. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
12. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
13. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
14. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	8/8	1.00/1.00
15. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	7/7	0.88/0.88
SCALE VALIDITY		

S-CVI-UA BEGRIPLIGHET/RELEVANS	0.67/0.93	
S-CVI-AVE BEGRIPLIGHET/RELEVANS	0.88/0.99	

I-CVI= Item Content Validity Index, S-CVI= Scale Content Validity Index, S-CVI/UA= Scale-Content Validity Index/Universal Agreement, S-CVI/Ave = Scale-Content Validity Index/Average

Kulturell anpassning

Fråga och 4 och 8 erhöll lågt I-CVI score för begriplighet, d.v.s. låg innehållsvaliditet. Fråga 4 ”Hur mycket medicinsk omvårdnad ger du ditt barn för att hjälpa till med andningen” gäller dagtid, och fråga 8 är samma fråga fast nattetid.

Författaren gjorde då ett förklarande tillägg till frågan så att den i stället lød; ” Hur mycket medicinsk omvårdnad ger du ditt barn för att hjälpa till med andningen? Till exempel andningsgymnastik, inhalationer, slemsug, C-PAP?”

Experterna kontaktades igen och fick frågan hur de skulle skatta frågan med det förklarande tillägget. Efter tillägget erhöles ett I-CVI =1.00.

LRSQ-F frågeformulär erhöil S-CVI/UA = 0.67 för begriplighet före och S-CVI/UA = 0.80 efter revidering av frågorna 4 och 8 (Tabell 2).

LRSQ-F frågeformulär erhöil S-CVI/Ave = 0.88 för begriplighet före och S-CVI/Ave = 0.98 efter revidering av frågorna 4 och 8 (Tabell 2).

LRSQ-F S-CVI/UA och S-CVI/AVE för relevans var oförändrat efter revidering av frågorna 4 och 8.

Tabell 2. Kulturell anpassning, justering av fråga 4 och 8 gällande begriplighet (n=8)

	BEGRIPLIGHET FÖRE ANPASSNING	BEGRIPLIGHET EFTER ANPASSNING	RELEVANS FÖRE	RELEVANS EFTER
S-CVI/UA	0.67	0.80	0.93	oförändrat
S-CVI/AVE	0.88	0.98	0.99	oförändrat

S-CVI/UA= Scale-Content Validity Index/Universal Agreement, S-CVI/Ave 0 Scale-Content Validity Index/Average.

LRSQ-F bedöms ha en utmärkt innehållsvaliditet både avseende begriplighet, efter den kulturella anpassningen (Tabell 2), och relevans (Tabell 1, 2).

4.1.3 Kognitiva intervjuer, experter

Kognitiva intervjuer användes som komplement till de kvantitativa skattningarna. Detta för att undersöka experternas uppfattningar gällande frågorna i LRSQ-F samt om det skulle kunna vara användbart i ett kliniskt sammanhang. De frågor som särskilt uppskattades var frågorna gällande föräldrarnas mående. Kommentarer som återkom var *”Jättebra att skilja på natt och dag”*, *”Jätteviktigt att fråga både om barnets och föräldrarnas sömn*. En annan kommentar som återkom var den att så mycket ansvar ligger på föräldrarna, att de förväntas kunna så mycket *”Vi förväntar oss att föräldrarna ska sköta så mycket så det är viktigt att fråga hur de mår”*, *”Man vill fånga föräldrarna, hur de har det och vilka svårigheter de har”*. Experterna var eniga i att något liknande frågeformulär inte existerar i nuläget men att det var relevanta frågor som är viktiga att ta hänsyn till. Särskilt relevanta ansågs frågorna i den sista delen vara, påverkan på barnets och vårdarens livskvalitet, hälsa och välmående. Två av informanterna uttryckte det som *”kan man sätta flera kryss på betydelsefullhet bara för att visa på vikten av detta”* oberoende av varandra.

4.2 Resultat Föräldrar

4.2.1 Bakgrundsdata föräldrar

Fjorton föräldrar till elva barn intervjuades. Ålder på barnen var 3-17 år. Alla föräldrar bodde på heltid med sina barn och dess andra biologiska förälder. Vissa av barnen hade avlastning på korttidsboende ett par nätter per månad men bodde mestadels hemma. Några familjer hade även tillgång till personlig assistans i hemmet, hela eller delar av dygnet. Alla barn utom två hade syskon. Underliggande diagnos som angavs var CP (6 av 11 barn), övriga var kromosomavvikelse och ryggmärksbräck (MMC). Alla barnen hade svåra intellektuella funktionsnedsättningar i samband med sin rörelsenedsättning. Examen från högskola/universitet angavs som högsta utbildning av elva av de fjorton föräldrar och elva av fjorton föräldrar arbetade eller studerade på 75 % av heltid eller mer.

4.2.3 Test av innehållsvaliditet och kulturell anpassning

Innehållsvaliditet

Alla 14 föräldrar skattade alla frågor. Innehållsvaliditeten bedömdes med hjälp av svaren från skattningstabellerna (Tabell 3).

Gällande begriplighet erhöll 14 av 15 frågor I-CVI = 1.00, 1 fråga erhöll I-CVI = 0.86.

Gällande betydelsefullhet erhöll 13 frågor I-CVI = 1.00, 1 fråga erhöll I-CVI = 0.93 och 1 fråga erhöll I-CVI = 0.71, d.v.s. alla utom 1 fråga har god innehållsvaliditet gällande betydelsefullhet.

Frågan som ej erhöll god innehållsvaliditet var fråga 15 *”Hur har ditt barns andningsrelaterade besvär påverkat familjen ekonomiskt”*. Frågan är fortsatt kvar i formuläret.

LRSQ-F formuläret erhöill S-CVI/UA = 0.93 för begriplighet och S-CVI/UA = 0.86 för betydelsefullhet.

LRSQ-F formuläret erhöill S-CVI/Ave = 0.99 för begriplighet och S-CVI/Ave = 0.97 för betydelsefullhet.

Tabell 3 Föräldrar. Antal föräldrar som skattat LRSQ-F begriplighet och relevans (n=14)

FRÅGA BEGRIPLIGHET/RELEVANS	ANTAL SOM SKATTAT 3 EL 4	I-CVI
1. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
2. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
3. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
4. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	0.86/1.00
5. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
6. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
7. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
8. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
9. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
10. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/0.93
11. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
12. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
13. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
14. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/14	1.00/1.00
15. BEGRIPLIGHET/RELEVANS	14/10	1.00/0.71
SCALE VALIDITY		
S-CVI-UA BEGRIPLIGHET/RELEVANS	0.93/0.86	
S-CVI-AVE BEGRIPLIGHET/RELEVANS	0.99/0.97	

I-CVI= Item Content Validity Index, S-CVI= Scale-Content validity Index, S-CVI/UA= Scale-Content Validity Index/Universal Agreement, S-CVI/Ave = Scale-Content Validity Index/Average

4.2.4 Kognitiva intervjuer, föräldrar

Alla föräldrar uppfattade frågorna i formuläret var lättbegripliga och att de flesta var betydelsefulla. Vissa skulle ha föredragit mer preciserade alternativ då man

efterfrågar ”hur ofta”, till exempel antal dagar per vecka eller liknande. De uppgav att det kan vara svårt att relatera till hur mycket som är mycket, att det är så individuellt. Det är lätt jämföra sitt barns situation med andra familjer.

”Bra med formuläret att man kan samla ihop sina frågor. Bra formulär, inte för många eller för kluriga frågor. Det här hade jag gärna haft förut, svårt att berätta hur man känner. Bra att tänka tillbaka en månad, jag tänker oftast bara en vecka. Jag tycker att det här är bra.”

Frågan gällande föräldrars sömn upplevdes som en betydelsefull fråga men beroende på om barnet har tillgång till natt-assistans eller inte påverkas föräldrarnas sömn mer eller mindre. Den fråga som ansågs minst betydelsefull av föräldrarna var frågan avseende deras ekonomiska situation men fråga är fortsatt kvar i formuläret. Några föräldrar arbetade delvis som assistenter åt sina barn eller så hade de tillgång till omvårdnadsbidrag. Flera föräldrar uppgav, precis som experterna gjort tidigare, att de uppfattar att mycket av ansvaret läggs på dem som föräldrar i stället för på sjukvården. Då intervjuaren ställde frågan om det fanns något som saknades i formuläret uppgavs som exempel att ha ett fält med fritext i slutet där man kan skriva om det är något annat som man vill framföra. Eller en fråga gällande om man som förälder upplever att man fått den information och stöd man behöver för att kunna hantera sitt barns situation. Föräldrarna uppfattade frågeformuläret som användbart som förberedelse inför ett besök hos läkaren. Då tiden ofta är knapp är det bra att kunna fokusera på de områden där de största problemen föreligger.

”Bra som diskussionsunderlag, bra att man tänker efter innan i lugn och ro. Jättebra att skicka ut det innan så att man tar upp de relevanta frågorna. Tror att det kan underlätta, det blir lätt fel om man bara har ett snabbt besök”.

4.2.5 Test-retest

LRSQ-F visade på god test-retest reliabilitet Cohen´s Weighted Kappa = 0.73 (Tabell 4). SPSS version 27 användes för beräkningarna.

Tabell 4 Test-retest

Cohen's Weighted Kappa						
Ratings	Weighted Kappa ^a	Asymptotic			95% Asymptotic Confidence Interval	
		Std. Error ^b	z ^c	Sig.	Lower Bound	Upper Bound
Test - retest	,728	,053	4,409	,000	,623	,832

a. The estimation of the weighted kappa uses linear weights.

b. Value does not depend on either null or alternative hypotheses.

c. Estimates the asymptotic standard error assuming the null hypothesis that weighted kappa is zero.

Då detta test visade på ett värde 0.73, som är nära mycket god =0.75, anses det som en god överensstämmelse. Om man tar hänsyn till konfidensintervallet så skulle det lägre värdet, 0.62, falla inom intervallet för måttlig till god överensstämmelse. Det högre värdet, 0.83, anses som mycket god överensstämmelse (45).

5. Diskussion

LRSQ-F är ett frågeformulär som undersöker andningsrelaterade besvär hos barn med flerfunktionsnedsättning. LRSQ-F visade i denna studie på god innehållsvaliditet både gällande de separata frågorna och för formuläret som helhet. Innehållsvaliditeten gäller för en svensk kontext och både experter och föräldrar har ansett att LRSQ-F är användbart. LRSQ-F har även visat på en hög test-retest reliabilitet.

Metoddiskussion

Översättningen från engelska till svenska gjordes av författaren själv med hjälp av en kollega. Författaren själv har studerat engelska på högskolenivå och kollegan har studerat till arbetsterapeut samt bott och arbetat i Storbritannien. Tillbaka-översättningen utfördes av en auktoriserad översättare. Det ansågs tillräckligt i detta arbete då LRSQ-F i original är konstruerat med ett enkelt och lättbegripligt språk. Hade det varit ett mer komplicerat språk hade det varit nödvändigt att fler personer lämnade åsikter gällande översättningen för att få en så bra översättnings om möjligt.

Frågorna i tidigare versioner av LRSQ (4,57) har testats med Cronbachs alfa för dess interna konsistens. Cronbachs alfa är en koefficient som anses vara ett mått på reliabilitet eller intern konsistens i en skala. I denna studie valdes dock CVI som analysmetod. CVI är det mest använda sättet att utvärdera ett frågeformulär (52,54,58) och valdes då det ger mer information om varje fråga för sig och frågeformuläret som helhet. CVI valdes även för att kunna analysera både begripligheten och betydelsefullheten och inte endast den interna överensstämmelsen. Nackdelen med att använda sig av olika metoder är att det inte går att direkt korrelera den engelskspråkiga versionen med den svenska.

Det rekommenderade sättet att testa ett frågeformulär genom att använda CVI är att först intervjua experter. Med experter menas personer som arbetar inom det aktuella området och har god erfarenhet av det (52). Det rekommenderade antalet experter varierar mellan två till 20 individer (59), men oftast rekommenderas sex till tio experter (54,55,58). I denna studie intervjuades åtta experter som alla hade lång erfarenhet av att arbeta med barn med flerfunktionsnedsättning och andningsrelaterad problematik. När experterna har skattat frågorna beräknas CVI för att se om någon eller några frågor behöver anpassas. I denna studie var det två frågor som behövde anpassas och efter det erhöll även de god innehållsvaliditet gällande begriplighet och relevans. Det är även viktigt att personer som är tänkta att besvara frågeformuläret, lekmanexperter, får uttrycka sin uppfattning om frågorna (52), i detta fall föräldrar till barn med flerfunktionsnedsättning. Det var fjorton föräldrar som skattade det anpassade frågeformuläret. De föräldrar som deltog i denna studie har alla erfarenhet av det aktuella området. Det rekommenderade antalet lekmanexperter är sex till 20 personer (52). Då det i denna studie deltog åtta experter och 14 lekmanexperter, föräldrar, så kan tillförlitligheten anses som god.

För att erhålla ytterlig information om hur frågorna och formuläret som helhet uppfattades användes kognitiva intervjuer. Det är en vanlig intervjuteknik då frågeformulär konstrueras (43,56,60). Detta gav en fylligare bild av hur frågorna uppfattades och om formuläret uppfattades som användbart. Tanken från början var att ha fokusgrupper med experter och föräldrar var för sig men på grund av pandemin gick inte detta att genomföra. Det hade varit intressant att höra vad som framkommit

vid sådana diskussioner. I de fall experter och föräldrar var två vid intervjutillfället kunde det bli en diskussion gällande hur frågorna uppfattades. Det kan vara lättare att få fram olika tankar om man som intervjuare lyssnar på informanter som diskuterar med varandra än att diskutera själv med en ensam informant (43,60).

Resultatdiskussion

LRSQ-F har i denna studie visat på god innehållsvaliditet, både gällande frågorna separat och frågeformuläret som helhet. Det har även visat sig vara reliabelt och det anses som användbart i en svensk kontext av både experter och föräldrar. Då den engelska studien som utvärderat LRSQ-F inte finns publicerad ännu har det inte gått att jämföra resultaten i föreliggande studie med den. Även tidigare versioner av LRSQ, som denna version är baserat på, har visat på god validitet och reliabilitet (3,4,57). I-CVI visade på god innehållsvaliditet gällande begriplighet efter justeringen av två frågor. Frågorna hade skattats som relevanta redan innan justering så författaren upplevde det som en viktig fråga att behålla i formuläret. Föräldrarna fick bedöma ett frågeformulär där frågorna hade blivit förtydligade och de visade då på god innehållsvaliditet. Troligtvis hade de skattat på samma sätt som experterna om frågorna inte hade blivit justerade. I-CVI gällande relevans för fråga 15, frågan om den ekonomiska situationen, bedömdes som mindre relevant av föräldrar (0.71) än experter (0.88). Att föräldrar inte anser denna fråga som så betydelsefull kan bero på att Sverige har ett mer utökat socialt skyddsnet med möjlighet till assistans och/eller omvårdnadsbidrag som saknas i Storbritannien. Denna fråga kan behöva ses över vid vidare forskning. S-CVI/UA och S-CVI/Ave bedömdes som god innehållsvaliditet av både experter och föräldrar. Det är av vikt att undersöka innehållsvaliditeten på olika sätt, både för frågorna för sig och för frågeformuläret som helhet. I det här fallet hade det varit svårt att identifiera de frågor som inte upplevdes som lika begripliga eller relevanta som de övriga om man endast hade tittat på frågeformuläret som helhet. Samstämmigheten mellan experter och föräldrar stärker resultatet att LRSQ-F kan anses reliabelt och har god innehållsvaliditet.

Ytvaliditeten, som är en enkel form av innehållsvaliditet, var av intresse att undersöka för att få en uppfattning av experternas spontana reaktion vid en första anblick. Då ett formulär uppfattas som positivt från början är det större sannolikhet att det besvaras. Diskriminativ validitet har inte undersökts i denna studie. Det är något som behöver undersökas för att se om det går att särskilja barn med flerfunktionsnedsättning och andningsrelaterad problematik från en grupp barn som inte förväntas ha andningsrelaterade besvär. Detta kan göras genom att låta en kontrollgrupp besvara LRSQ-F och sedan jämföra deras svar med svaren från denna studie.

Experter och föräldrar var eniga i att detta frågeformulär kan vara användbart om det skickas ut till familjerna innan ett besök, och helst skickas tillbaka också, så att både familj och den profession de ska träffa kan förbereda sig inför mötet. Experter uttryckte även att formuläret skulle kunna vara användbart som jämförelse av barnets och familjen situation om det besvarades vid årliga kontroller och som utvärdering av olika insatser för den andningsrelaterade problematiken. Detta stämmer väl överens med vad författarna till de engelskspråkiga versionerna av LRSQ har uttryckt men ännu inte undersökt. Något liknande frågeformulär, som ger en bra sammanfattning av både barnets och familjen mående, finns i nuläget inte att tillgå i Sverige. Att undersöka inte bara barnets, utan även föräldrarnas mående har visat sig vara betydelsefullt i ett flertal studier (3,8,37,38,41,42). Att även undersöka

föräldrarnas mående är av vikt för att det är de som tar hand om sina barn och det är de som kan tolka barnen och deras mående.

Resultatet av test-retest visade på endast god överensstämmelse. Detta kan bero på att formuläret efterfrågar hur det har varit den senaste månaden. Tidsperioden mellan testerna som valdes var två till tre veckor då det var denna tidsperiod som använts i tidigare studier av LRSQ. Vilken tidsperiod som valts i den senaste studien vet författaren inte då denna studie inte är publicerad ännu. Det som rekommenderas för test-retest i litteraturen är en till två veckors mellanrum och svaren bör då stämma överens om inget har förändrats gällande det som efterfrågas (43,45,47). Även om det i denna studie blev ett resultat som var nära mycket god skulle det ha varit intressant att se om det blivit ett annat resultat med den kortare tidsrymden. Då LRSQ-F ställer frågor gällande den senaste månaden kan två till tre veckor ha varit en för lång tidsrymd och det skulle ha varit intressant att se om resultatet blivit annorlunda om det utförts med den kortare tidsrymden som rekommenderas i litteraturen. Cohens Kappa score (viktad) valdes som analysmetod då det var det som användes i originalartiklarna.

Andningsrelaterad problematik innebär en stor risk för morbiditet och mortalitet hos barn med flerfunktionsnedsättning. LRSQ-F är mer anpassat för barn med flerfunktionsnedsättning och då det är stor risk för andningsrelaterad problematik hos dessa barn finns det en klinisk relevans att kunna identifiera dessa patienter tidigt.

Fortsatt forskning

Det återstår bland annat att undersöka diskriminativ validitet, det vill säga förmåga att skilja ut respiratoriska problem mellan grupper med olika grad av respiratoriska problem. Tidigare versioner av LRSQ (2,4,57) har visat på en god diskriminativ validitet. Det ligger i forskarens ansvar att använda sig av de svar som respondenterna bidragit med (43). Därför skulle även en implementeringsstudie behöva genomföras. Det finns studier gällande implementering av guidelines men inte så många gällande frågeformulär. De har dock vissa gemensamma nämnare som är användbara. Greenhalgh et. al (61) sammanfattade i en studie 2006 faktorer som är viktiga för en lyckad implementering; hur användbara de är, hur individuella kliniker uppfattar dem, hur de passar in i den lokala organisationen och att det finns en eller flera professionella som driver arbetet framåt (61). Då både experter och föräldrar har ansett frågeformuläret begripligt och relevant är det något som behöver tas till vara. För att implementera frågeformuläret skulle man bland annat behöva undersöka eventuella hinder då alla kliniker har olika rutiner och erbjuder tillfälle att diskutera hur implementeringen skulle kunna gå till då endast information inte är tillräckligt (62). En neuropediatrik- eller lung- och allergiklinik på ett sjukhus är en lämplig plats för en implementeringsstudie. Då föräldrarna i denna studie uttryckt att LRSQ-F är kort och lättbegriplig kan även det ses som en styrka för formuläret. Om föräldrar är informerade om och positivt inställda till formuläret kan det bidra till en lyckad implementering då de kanske efterfrågar just detta formulär (62). LRSQ-F är av klinisk relevans för barn med flerfunktionsnedsättning då de alla har risk för andningsrelaterad problematik, i första hand för att identifiera problematiken tidigt så att relevanta insatser kan sättas in. För att underlätta för både föräldrar och vårdgivare skulle en digital version av frågeformuläret vara bra. Då skulle föräldrar kunna fylla i det i lugn och ro i hemmet och den profession de ska träffa hinner se svaret på frågorna innan besöket och kan förbereda sig för det.

6. Konklusion

Denna studie har visat att den svenska översättningen av LRSQ-F anses vara valid och reliabel samt användbar i en svensk kontext. Frågorna i formuläret har skattats som lätta att förstå och relevanta av både experter och föräldrar. Inga stora kulturella anpassningar behövde göras för att frågeformuläret skulle passa i en svensk kontext. Frågeformuläret anses bidra med väsentlig information om det aktuella barnets andningsrelaterade problematik samt både barnets och familjens mående. Det är av klinisk relevans att upptäcka dessa problem i tid då det är en bidragande orsak till morbiditet och mortalitet i denna patientgrupp. Det är även av vikt att ta med även föräldrars mående då det är de som vårdar barnet. Inget liknande frågeformulär finns att tillgå i Sverige i nuläget.

Referenslista;

1. Powell CVE, McNamara P, Solis A, Shaw NJ. A parent completed questionnaire to describe the patterns of wheezing and other respiratory symptoms in infants and preschool children. *Arch Dis Child* [Internet]. 2002 Nov [cited 2019 Feb 10];87(5):376–9. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/12390904>
2. Trinick R, Darracott C, Southern KW, McNamara PS. Validation of the Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire (LRSQ) in well children with cystic fibrosis (CF). *J Cyst Fibros* [Internet]. 2010 Jun 1 [cited 2019 May 19];9:S57. Available from: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S1569199310602226>
3. Trinick RE, Bunni L, Thorburn K, Hackett AP, Dalzell M, McNamara PS. An observational study examining the relationship between respiratory symptoms, airway inflammation and bacteriology in children with severe neurodisability. *PLoS One* [Internet]. 2015 [cited 2019 May 19];10(4):e0124627. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25853250>
4. Trinick R, Southern KW, McNamara PS. Assessing the Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire in children with cystic fibrosis. *Eur Respir J* [Internet]. 2012 Apr [cited 2019 Feb 10];39(4):899–905. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21885388>
5. Beaton DE, Bombardier C, Guillemin F, Ferraz MB. Guidelines for the process of cross-cultural adaptation of self-report measures. *Spine (Phila Pa 1976)* [Internet]. 2000 Dec 15 [cited 2019 May 1];25(24):3186–91. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11124735>
6. Socialstyrelsen. Socialstyrelsen - Termbank [Internet]. 2017 [cited 2017 Feb 20]. Available from: <http://termbank.socialstyrelsen.se/?fTerm=v>
7. Winfield NR, Barker NJ, Turner ER, Quin GL. Non-pharmaceutical management of respiratory morbidity in children with severe global developmental delay. *Cochrane Database Syst Rev* [Internet]. 2014 Oct 19 [cited 2019 Feb 11];(10):CD010382. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25326792>

8. Kansra S, Ugonna K. Fifteen-minute consultation: approach to management of respiratory problems in children with neurodisability. *Arch Dis Child Educ Pract Ed* [Internet]. 2016 Oct [cited 2019 Apr 8];101(5):226–31. Available from: <http://ep.bmj.com/lookup/doi/10.1136/archdischild-2015-308350>
9. Flerfunktionsnedsättning [Internet]. [cited 2021 Jun 20]. Available from: <https://www.habilitering.se/fakta-och-rad/kort-om-funktionsnedsattningar/flerfunktionsnedsattning/>
10. Himmelmann K, Beckung E, Hagberg G, Uvebrant P. Gross and fine motor function and accompanying impairments in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* [Internet]. 2006 Jun 15 [cited 2019 Sep 8];48(6):417–23. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1017/S0012162206000922>
11. Rosenbaum P, Paneth N, Leviton A, Goldstein M, Bax M. A report: The definition and classification of cerebral palsy April 2006. Vol. 49, *Developmental Medicine and Child Neurology*. Blackwell Publishing Ltd; 2007. p. 8–14.
12. Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, Russell D, Wood E, Galuppi B. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* [Internet]. 1997 Apr [cited 2019 Jul 16];39(4):214–23. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9183258>
13. Palisano R, Rosenbaum P, Bartlett D, Livingston M, Walter S, Russell D, et al. Svensk översättning av Gross Motor Function Classification System Expanded & Revised (GMFCS-E&R) [Internet]. Vol. 39, Reference: *Dev Med Child Neurol*. 1997 [cited 2019 Jul 18]. Available from: www.cpun.se
14. Blackmore AM, Bear N, Blair E, Gibson N, Jalla C, Langdon K, et al. Factors Associated with Respiratory Illness in Children and Young Adults with Cerebral Palsy. *J Pediatr* [Internet]. 2016 Jan [cited 2019 Feb 10];168:151-7.e1. Available from: <https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S0022347615011385>
15. Panitch HB. Airway clearance in children with neuromuscular weakness. *Curr Opin Pediatr* [Internet]. 2006 Jun [cited 2019 Feb 10];18(3):277–81. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16721148>
16. Proesmans M, Vreys M, Huenaerts E, Haest E, Coremans S, Vermeulen F, et al. Respiratory morbidity in children with profound intellectual and multiple disability. *Pediatr Pulmonol* [Internet]. 2015 Oct [cited 2019 Feb 10];50(10):1033–8. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25327770>
17. Mahon M, Kibirige MS. Patterns of admissions for children with special needs to the paediatric assessment unit. *Arch Dis Child* [Internet]. 2004 Feb [cited 2019 Apr 8];89(2):165–9. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/14736636>

18. Lagerkvist A-L, Sten G, Westerberg B, Ericsson-Sagsjö A, Bjure J. Positive expiratory pressure (PEP) treatment in children with multiple severe disabilities. *Acta Paediatr* [Internet]. 2005 May 1 [cited 2019 Apr 8];94(5):538–42. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1080/08035250410025122>
19. Blackmore AM, Bear N, Blair E, Langdon K, Moshovis L, Steer K, et al. Predicting respiratory hospital admissions in young people with cerebral palsy. *Arch Dis Child*. 2018;103(12).
20. Seddon PC, Khan Y. Respiratory problems in children with neurological impairment. *Arch Dis Child* [Internet]. 2003 Jan 1 [cited 2019 Aug 27];88(1):75–8. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/12495971>
21. Arvedson J, Rogers B, Buck G, Smart P, Msall M. Silent aspiration prominent in children with dysphagia. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* [Internet]. 1994 Jan [cited 2019 Aug 30];28(2–3):173–81. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/8157416>
22. Littleton SR, Heriza CB, Mullens PA, Moerchen VA, Bjornson K. Effects of Positioning on Respiratory Measures in Individuals With Cerebral Palsy and Severe Scoliosis. *Pediatr Phys Ther* [Internet]. 2011 [cited 2019 Aug 27];23(2):159–69. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21552079>
23. Sullivan PB, Morrice JS, Vernon-Roberts A, Grant H, Eltumi M, Thomas AG. Does gastrostomy tube feeding in children with cerebral palsy increase the risk of respiratory morbidity? *Arch Dis Child* [Internet]. 2006 Jun 1 [cited 2019 Aug 27];91(6):478–82. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16446283>
24. Ersöz M, Selçuk B, Gündüz R, Kurtaran A, Akyüz M. Decreased chest mobility in children with spastic cerebral palsy. *Turk J Pediatr* [Internet]. [cited 2019 Aug 27];48(4):344–50. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17290570>
25. Ishida C, Fujita M, Umemoto H, Taneda M, Sanae N, Tazaki T. Respiratory function in handicapped children. *Brain Dev* [Internet]. 1990 [cited 2019 Aug 30];12(4):372–5. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/2146900>
26. Toussaint M, Boitano LJ, Gathot V, Steens M, Soudon P. Limits of effective cough-augmentation techniques in patients with neuromuscular disease. *Respir Care* [Internet]. 2009 Mar [cited 2019 Feb 10];54(3):359–66. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/19245730>
27. Öhlund A-C. Vad är flerfunktionsnedsättning? - www.lul.se [Internet]. [cited 2019 Aug 30]. Available from: <http://www.lul.se/sv/Kampanjwebbar/Infoteket/Funktionsnedsattningar/Flerfunktionshinder1/Vad-ar-flerfunktionshinder/>
28. Lumb AB, Preceded by: Lumb AB. *Nunn's applied respiratory physiology*. 544 p.

29. Walsh BK, Hood K, Merritt G. Pediatric airway maintenance and clearance in the acute care setting: how to stay out of trouble. *Respir Care* [Internet]. 2011 Sep 1 [cited 2019 Aug 27];56(9):1424–40; discussion 1440-4. Available from: <http://rc.rcjournal.com/cgi/doi/10.4187/respcare.01323>
30. Schechter MS. Airway clearance applications in infants and children. *Respir Care* [Internet]. 2007 Oct [cited 2019 Aug 27];52(10):1382–90; discussion 1390-1. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17894905>
31. Garrard CS, Shah M. The effects of expiratory positive airway pressure on functional residual capacity in normal subjects. *Crit Care Med* [Internet]. 1978 Sep [cited 2019 Aug 27];6(5):320–2. Available from: <http://content.wkhealth.com/linkback/openurl?sid=WKPTLP:landingpage&an=00003246-197809000-00004>
32. Rubin BK. Aerosol Medications for Treatment of Mucus Clearance Disorders. *Respir Care* [Internet]. 2015 Jun 1 [cited 2019 Aug 27];60(6):825–32. Available from: <http://rc.rcjournal.com/cgi/doi/10.4187/respcare.04087>
33. THEERAKITTIKUL T, RICAURTE B, ABOUSSOUAN LS. Noninvasive positive pressure ventilation for stable outpatients: CPAP and beyond. *Cleve Clin J Med* [Internet]. 2010 Oct 1 [cited 2019 Aug 27];77(10):705–14. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/20889808>
34. Bamat N, Millar D, Suh S, Kirpalani H. Positive end expiratory pressure for preterm infants requiring conventional mechanical ventilation for respiratory distress syndrome or bronchopulmonary dysplasia. *Cochrane Database Syst Rev* [Internet]. 2012 Jan 18 [cited 2019 Aug 27]; Available from: <http://doi.wiley.com/10.1002/14651858.CD004500.pub2>
35. Chatwin M, Ross E, Hart N, Nickol AH, Polkey MI, Simonds AK. Cough augmentation with mechanical insufflation/exsufflation in patients with neuromuscular weakness. *Eur Respir J* [Internet]. 2003 Mar [cited 2019 Aug 27];21(3):502–8. Available from: <http://erj.ersjournals.com/lookup/doi/10.1183/09031936.03.00048102>
36. Bergqvist H, Leo J, Mårtensson C, Sevelin H, Wahlgren L. Metoder för att förbättra respirationen hos barn, ungdomar och vuxna inom habilitering [Internet]. [cited 2019 Aug 14]. Available from: <http://habiliteringisverige.se/site/uploads/2018/09/Metoder-för-att-förbättra-respirationen-hos-barn-ungdomar-och-vuxna-inom-habilitering.pdf>
37. Raina P. The Health and Well-Being of Caregivers of Children With Cerebral Palsy. *Pediatrics* [Internet]. 2005 [cited 2019 Jul 11];115(6):e626–36. Available from: www.pediatrics.org/cgi/doi/10.1542/peds.
38. Carnevale FA. Daily Living With Distress and Enrichment: The Moral Experience of Families With Ventilator-Assisted Children at Home. *Pediatrics* [Internet]. 2006 Jan 1 [cited 2019 Jul

- 11];117(1):e48–60. Available from:
<http://pediatrics.aappublications.org/cgi/doi/10.1542/peds.2005-0789>
39. Rahi JS, Manaras I, Tuomainen H, Hundt GL. Meeting the Needs of Parents Around the Time of Diagnosis of Disability Among Their Children: Evaluation of a Novel Program for Information, Support, and Liaison by Key Workers. 2004;114(4). Available from:
www.pediatrics.org/cgi/doi/10.1542/
40. Fitzgerald DA, Follett J, Van Asperen PP. Assessing and managing lung disease and sleep disordered breathing in children with cerebral palsy. *Paediatr Respir Rev* [Internet]. 2009 Mar [cited 2019 Aug 27];10(1):18–24. Available from:
<https://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S1526054208000729>
41. Pelke S, Wager J, Claus BB, Zernikow B, Reuther M. Development and psychometric validation of the family-centered multidimensional outcome measure for pediatric palliative care targeted to children with severe neurological impairment—A multicenter prospective study. *Palliat Med* [Internet]. 2020 Mar 1 [cited 2021 Apr 13];35(3):611. Available from:
</pmc/articles/PMC7975858/>
42. Ribbers S, Wager J, Hartenstein-Pinter A, Zernikow B, Reuther M. Core outcome domains of pediatric palliative care for children with severe neurological impairment and their families: A qualitative interview study. *Palliat Med* [Internet]. 2020 Mar 1 [cited 2021 Apr 13];34(3):309–18. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31680627/>
43. Wenemark M. Enkätmetodik med respondenterna i fokus (38297-01) | Studentlitteratur [Internet]. 1st ed. Studentlitteratur; 2017 [cited 2019 Jul 19]. 193–195 p. Available from:
<https://www.studentlitteratur.se/#9789144096414/Enkätmetodik+med+respondenterna+i+fokus>
44. Nyrén O, Garwicz M, Shoshan M, Nilsson K. Grunderna för ett vetenskapligt förhållningssätt inom medicinen [Internet]. [cited 2019 Jun 27]. Available from:
https://www.adlibris.com/se/bok/grunderna-for-ett-vetenskapligt-forhallningssatt-inom-medicinen-9789147114009?gclid=EAIaIQobChMIwYf_nsSJ4wIVCNKyCh2RYQ83EAQYASABEgKB RfD_BwE
45. Kirkwood BR, Sterne JAC, Kirkwood BR. *Essential medical statistics* [Internet]. Blackwell Science; 2003 [cited 2019 Jun 27]. 501 p. Available from:
<https://www.boktugg.se/bok/9780865428713/essential-medical-statistics-2nd-edition/>
46. Sperber AD. Translation and validation of study instruments for cross-cultural research. *Gastroenterology* [Internet]. 2004 Jan [cited 2019 Sep 1];126(1 Suppl 1):S124–8. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/14978648>
47. Patel R, Davidsson B. *Forskningsmetodikens grunder* (3095-05) | Studentlitteratur [Internet]. 2nd ed. 1994 [cited 2019 Jul 19]. 85–86 p. Available from:

<https://www.studentlitteratur.se/#9789144126050/Forskningsmetodikens+grunder>

48. Kirkwood BR, Sterne JAC, Kirkwood BR. *Essential medical statistics*. Blackwell Science; 2003. 501 p.
49. Cleland JA. The qualitative orientation in medical education research. *Korean J Med Educ* [Internet]. 2017 Jun 1 [cited 2019 Jul 11];29(2):61–71. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28597869>
50. Hyland ME. The Living with Asthma Questionnaire. *Respir Med* [Internet]. 1991 Sep [cited 2019 Aug 31];85 Suppl B:13–6; discussion 33-7. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/1759015>
51. WILSON CB, JONES PW, O’LEARY CJ, COLE PJ, WILSON R. Validation of the St. George’s Respiratory Questionnaire in Bronchiectasis. *Am J Respir Crit Care Med* [Internet]. 1997 Aug [cited 2019 Aug 31];156(2):536–41. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9279236>
52. Rubio DM, Berg-Weger M, Tebb SS, Lee ES, Rauch S. Objectifying content validity: Conducting a content validity study in social work research. *Soc Work Res* [Internet]. 2003 Jun 1 [cited 2019 Apr 7];27(2):94–104. Available from: <https://academic.oup.com/swr/article-lookup/doi/10.1093/swr/27.2.94>
53. Pergert P, Bartholdson C, Wenemark M, Lützn K, af Sandeberg M. Translating and culturally adapting the shortened version of the Hospital Ethical Climate Survey (HECS-S) – retaining or modifying validated instruments. *BMC Med Ethics* [Internet]. 2018 Dec 10 [cited 2019 Mar 20];19(1):35. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/29747639>
54. Rodrigues IB, Adachi JD, Beattie KA, MacDermid JC. Development and validation of a new tool to measure the facilitators, barriers and preferences to exercise in people with osteoporosis. *BMC Musculoskelet Disord* [Internet]. 2017 Dec 19 [cited 2021 Apr 25];18(1):540. Available from: <https://bmcmusculoskeletdisord.biomedcentral.com/articles/10.1186/s12891-017-1914-5>
55. Polit DF, Beck CT. The content validity index: Are you sure you know what’s being reported? critique and recommendations. *Res Nurs Health* [Internet]. 2006 Oct [cited 2019 Apr 7];29(5):489–97. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16977646>
56. Howlett O, McKinsty C, Lannin NA. Using the cognitive interviewing process to improve survey design by allied health: A qualitative study. *Aust Occup Ther J*. 2018;
57. Powell E, Mcnamara P, Solis A. A parent completed questionnaire to describe the patterns of wheezing and other respiratory symptoms in infants and preschool children. Available from: www.archdischild.com
58. Saiful M, Yusoff B. □ Malaysian Association of Education in Medicine and Health Sciences.

Educ Resour [Internet]. 2019 [cited 2021 May 8];11. Available from:
<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>

59. Armstrong TS, Cohen MZ, Eriksen L, Cleeland C. Content validity of self-report measurement instruments: An illustration from the development of the Brain Tumor Module of the M.D. Anderson Symptom Inventory. *Oncol Nurs Forum* [Internet]. 2005 Feb 8 [cited 2021 Jun 19];32(3):669–76. Available from: <https://onf.ons.org/onf/32/3/content-validity-self-report-measurement-instruments-illustration-development-brain-tumor>
60. af Sandeberg M, Wenemark M, Bartholdson C, Lütznén K, Pergert P. To change or not to change - translating and culturally adapting the paediatric version of the Moral Distress Scale-Revised (MDS-R). *BMC Med Ethics* [Internet]. 2017 Dec 20 [cited 2019 Mar 20];18(1):14. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28219363>
61. Greenhalgh T, Robert G, Macfarlane F, Bate P, Kyriakidou O. Diffusion of innovations in service organizations: Systematic review and recommendations. Vol. 82, *Milbank Quarterly*. 2004.
62. Livesey EA, Noon JM. BEST PRACTICE IMPLEMENTING GUIDELINES: WHAT WORKS. *Arch Dis Child Educ Pr Ed* [Internet]. 2007;92:129–34. Available from: <http://ep.bmj.com/>

Bilaga 1

Respiratoriskt frågeformulär Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire för barn med flerfunktionsnedsättning.

Detta formulär ställer frågor gällande andningsrelaterade besvär ditt barn haft den senaste månaden och hur det har påverkat familjen. Det är viktigt att försöka besvara alla frågor även om ditt barn inte haft några besvär eller om frågan inte är direkt relevant.

Barnets ålder:

Mor/far/annan som fyller i formuläret:

Var den senaste månaden en typisk månad avseende ditt barns andningsrelaterade besvär?

Ja Nej

Om nej, varför inte?

DAGTID senaste månaden;

1. Generellt sett, hur skulle du beskriva ditt barns andning, andningsrelaterade besvär eller slemproblematik?

Alla dagar bra De flesta dagar bra Några bra, några dåliga De flesta dåliga Alla dåliga

2. Hur ofta har ditt barn problem med sin andning? (detta kan inkludera rosslig andning, hosta, svårigheter att andas, låg saturation)

Inga problem alls Någon enstaka gång Några gånger Ofta Alltid

3. Hur ofta har ditt barn problem med slem?

Inga problem alls Någon enstaka gång Några gånger Ofta Alltid

4. Vilken nivå av medicinsk omvårdnad ger du ditt barn för att hjälpa till med andningen?

Ingen alls Lite Medium Ganska mycket Våldigt mycket

NATTETID senaste månaden;

5. Generellt sett, hur skulle du beskriva ditt barns andning, andningsrelaterade besvär eller slemproblematik?

Alla nätter bra De flesta nätter bra Några bra, några dåliga De flesta dåliga Alla dåliga

6. Hur ofta har ditt barn problem med sin andning? (detta kan inkludera rosslig andning, hosta, svårigheter att andas, låg saturation)

Inga problem alls Någon enstaka gång Några gånger Ofta Alltid

7. Hur ofta har ditt barn problem med slem?

Inga problem alls Någon enstaka gång Några gånger Ofta Alltid

8. Vilken nivå av medicinsk omvårdnad ger du ditt barn för att hjälpa till med andningen?

Ingen alls Lite Medium Ganska mycket Väldigt mycket

PÅVERKAN PÅ BARNETS OCH VÅRDARENS LIVSKVALITÉT, HÄLSA OCH VÄLMÅENDE

Senaste månaden:

9. Hur skulle du beskriva ditt barns ork?

Normal/Som vanligt Mestadels normal Ibland normal, ibland låg Mestadels låg Låg/trött hela tiden

10. Hur har ditt barns andningsrelaterade besvär påverkat andra delar av dess hälsotillstånd (t.ex kramper, magbesvär, vikt)?

Inte alls Påverkat någon enstaka gång Viss påverkan Påverkat mycket Påverkat allt

11. Hur har ditt barns andningsrelaterade besvär påverkat dess förmåga att göra andra saker som att medverka i förskola/skola, fritids, sociala sammanhang som till exempel kalas?

Inte alls Påverkat någon enstaka gång Viss påverkan Påverkat mycket Påverkat allt

12. Hur har DITT BARNES sömn påverkats av andningsrelaterade besvär?

Inte alls Någon enstaka gång Vissa nätter De flesta nätterna Påverkat alla nätter

13. Hur har DIN sömn påverkats av ditt barns andningsrelaterade besvär?

Inte alls Någon enstaka gång Vissa nätter De flesta nätterna Påverkat alla nätter

14. Hur har ditt barns andningsrelaterade besvär (eller det du gör för att förhindra besvären) påverkat de saker ni gör som familj?

Inte alls Någon enstaka gång Viss påverkan Påverkat mycket
Påverkat allt

15. Hur har ditt barns andningsrelaterade besvär påverkat familjen ekonomiskt?

Har inte orsakat problem Någon enstaka gång Vissa problem Ganska mycket problem
Stora svårigheter

Bilaga 2.

Skattningsprotokoll för att värdera de frågor som ingår i Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire avseende begriplighet och betydelsefullhet.

		i mycket hög grad	i hög grad	i låg grad	i mycket låg grad
Dagtid					
Fråga 1	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 2	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 3	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 4	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Nattetid					
Fråga 5	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 6	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 7	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 8	lätt att förstå				

	betydelsefull				
Påverkan på livet, barn och familj					
Fråga 9	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 10	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 11	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 12	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 13	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 14	lätt att förstå				
	betydelsefull				
Fråga 15	lätt att förstå				
	betydelsefull				

Bilaga 3.

Validitetsprövning av Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire- översättning och kulturell anpassning i svensk kontext

Vi vill fråga dig om du vill delta i ett forskningsprojekt. I det här dokumentet får du information om projektet och om vad det innebär att delta.

Vad är det för projekt och varför vill ni att jag ska delta?

Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire (LRSQ) är ett frågeformulär bestående av 15 flervalfrågor som undersöker andningsrelaterade symptom dag- och natttid; hur symptomen påverkar barnet fysiskt och hur det påverkar barnet och familjen i det dagliga livet. Formuläret är utvecklat vid Alder Hey barnsjukhus i Liverpool.

Syftet med detta projekt är att översätta detta frågeformulär till svenska och testa det här i Sverige för att se om det är användbart i Sverige med. Både personer som träffar barn med flerfunktionsnedsättning i sitt arbete och anhöriga till barn med flerfunktionsnedsättning kommer att tillfrågas angående deltagande.

Du har fått detta informationsbrev då du är förälder till ett barn eller en ungdom med flerfunktionsnedsättning.

Forskningshuvudman för projektet är Habilitering och Hälsa, Region Stockholm. Studien genomförs som ett samarbete mellan Habilitering och Hälsa, Region Stockholm, Karolinska Institutet och Linköpings Universitet. Med forskningshuvudman menas den organisation som är ansvarig för studien.

Hur går studien till?

Du kommer bli inbjuden till en fokusgruppintervju som kommer ta ca 1 timme. Du får vid intervjutillfället fylla i några korta frågor för bakgrundsinformation. I dessa tider av Covid-19 kan även enskilda intervjuer erbjudas om det inte finns möjlighet att genomföra en gruppintervju.

LRSQ består av 15 flervalfrågor som man ska kryssa i. Ni kommer även få frågor gällande frågorna, om de verkar lätta att förstå t.ex. Det kommer även bli möjlighet att diskutera och kommentera frågorna. Hela intervjun kommer att spelas in med diktafon så att den ansvarige forskaren kan skriva ut samtalet i text efter intervjutillfället. De ifyllda formulären kommer också att samlas in. Intervjutillfället beräknas ta ca 1 timme.

Ca 3 veckor efter intervjutillfället kommer ni tillfrågas om att fylla i formuläret igen och skicka det i ett förfrankerat kuvert till den ansvarige forskaren.

Möjliga följder och risker med att delta i studien

Det finns inga kända risker med att delta i projektet.

Vad händer med mina uppgifter?

Projektet kommer att samla in och registrera information om dig.

Ljudupptagning och transkription kommer att bevaras på ett USB som kommer förvaras i ett låst journalskåp. Enbart forskarna i gruppen har tillgång till data för analys och handledning.

All data kommer att kodas så att ingen information går att härleda till en viss person. Resultaten kommer att presenteras på gruppnivå. Det är endast den ansvarige forskaren och forskningshuvudmannen som har tillgång till det insamlade materialet. Personuppgifter gallras efter 10 år. Säkerhetskopior får inte sparas längre än 15 år. Avidentifierad data förvaras inlåst i säkerhetsskåp. Kodnyckel förvaras inlåst på separat plats. Dina svar kommer behandlas så att inga obehöriga kan ta del av dem. Ansvarig för dina personuppgifter är Habilitering & Hälsa, SLSO. Enligt EU:s dataskyddsförordning har du rätt att kostnadsfritt få ta del av de uppgifter om dig som hanteras i studien, och vid behov få eventuella fel rättade. Du kan också begära att uppgifter om dig raderas samt att behandlingen av dina personuppgifter begränsas. Om du vill ta del av uppgifterna ska du kontakta Tatja Hirvikoski tatja.hirvikoski@sll.se 0708327677 Habilitering & Hälsa, Stockholms Läns Sjukvårdsområde, SLSO, Box 45436, 10431 Stockholm. Dataskyddsombud nås på; gdpr.slsos@sll.se 08-123 400 00. Om du är missnöjd med hur dina personuppgifter behandlas har du rätt att ge in klagomål till Datainspektionen, som är tillsynsmyndighet.

Vad händer med mina prover?

Inga prover kommer tas i denna studie

Hur får jag information om resultatet av studien?

Om du önskar ta del av det färdiga resultatet kan du meddela intervjuaren i samband med själva intervjun eller ta kontakt i efterhand.

Försäkring och ersättning

Ingen ersättning kommer kunna betalas ut i denna studie.

Ingen extra försäkring har tecknats.

Deltagandet är frivilligt

Ditt deltagande är frivilligt och du kan när som helst välja att avbryta deltagandet.

Om du väljer att inte delta eller vill avbryta ditt deltagande behöver du inte uppge varför, och det kommer inte heller att påverka din framtida arbetssituation.

Om du vill avbryta ditt deltagande ska du kontakta den ansvariga för studien (se nedan).

Ansvariga för studien

Ansvarig för studien är Tatja Hirvikoski, tatja.hirvikoski@sll.se 0708327677

Habilitering & Hälsa, Stockholms Läns Sjukvårdsområde, SLSO, Box 45436 10431 Stockholm.

Frågor gällande studien?

Kontakta Leg. Sjukgymnast, Cecilia Mårtensson, Specialist i Pediatrik

Telefon; 08-123 356 40 mail; cecilia.martensson@sll.se

Bilaga 4

Samtycke till att delta i studien

Jag har fått muntlig och skriftlig informationen om studien och har haft möjlighet att ställa frågor. Jag får behålla den skriftliga informationen.

Jag samtycker till att delta i studien Validitetsprövning av Liverpool Respiratory Symptom Questionnaire- Översättning och kulturell anpassning i svensk kontext.

Jag samtycker till att uppgifter om mig behandlas på det sätt som beskrivs i forskningspersonsinformation.

Jag samtycker till att mina ifyllda formulär sparas på det sätt som beskrivs i forskningspersonsinformation.

Plats och datum	Underskrift och namnförtydligande

Bilaga 5

Bakgrundsfrågor experter

- 1) Jag arbetar som: _____
- 2) Eventuell specialisering: _____
- 3) År när jag tog yrkesexamen: _____
- 4) Antal år som jag arbetat med barn med andningsrelaterad problematik?
 - 1-5 år
 - 6-10 år
 - mer är 10 år
- 5) Antal år jag arbetat med barn med flerfunktionsnedsättning?
 - 1-5 år
 - 6-10 år
 - mer än 10 år

Bakgrundsfrågor Föräldrar

För att i studien kunna se att vi får in svar från många olika sorters familjer ber vi dig fylla i några bakgrundsfrågor. Detta för att se om frågeformuläret är passande för alla.

Besvara frågorna nedan med barnet/ungdomen som har andningsrelaterade besvär i åtanke. Personen frågorna avser kommer att kallas "barnet".

Frågor om barnet/ungdomen

- 1) Min relation till barnet med flerfunktionsnedsättning som svaren på frågeformuläret avser:
 - förälder
 - bonusförälder

annat (t.ex familjehemsförälder) om annat,
vad: _____

2) Hur ofta träffar du barnet med flerfunktionsnedsättning?

Jag bor med barnet på **heltid**

Jag bor med barnet på **deltid**

Annat,

specificera: _____

3) Barnet med flerfunktionsnedsättning har diagnosen/diagnoserna:

4) Barnet med flerfunktionsnedsättning är:

flicka

pojke

annan könsidentitet

5) Barnet med flerfunktionsnedsättning är född:

Uppge år-månad-dag _____

6) Vilket Habiliteringscenter har barnet kontakt med?

Frågorna fortsätter på nästa sida, var god vänd 

Frågor om familjen

7) Hur många vuxna bor ni i hemmet?

Jag bor med barnet och dess andra biologiska förälder

Jag bor med barnet och min partner (ej biologisk förälder)

Jag bor själv med barnet

Annat, specificera: _____

8) Har ditt barn syskon?

Ange hur många och ålder på syskonet (hel, halv eller bonussyskon)

9) Har något/några av syskonen någon form av funktionsnedsättning?

Nej Ja, specificera:

Frågor om dig som besvarar formuläret

10) **Ålder**; jag är född år _____

11) **Kön**; jag är kvinna man annan könsidentitet

12) **Utbildningsbakgrund**:

- Grundskola (årskurs 1-9)
- Gymnasieexamen
- Examen från högskola/universitet
- Annat, ange vad-

13) **Nuvarande sysselsättning**:

- Arbetar heltid
- Arbetar deltid, antal % _____
- Sjukskriven, antal % _____
- Arbetssökande
- Annat (t.ex studerar, föräldraledig)
- ange: _____
- Arbetar som assistent åt mitt barn, hur mycket % _-
