

2017

RAPPORT

EN FULLSTENDIG METODEVURDERING

Vurdering av fire intensive habiliteringsprogram for barn og unge med hjerneskode

Utgitt av	Folkehelseinstituttet Avdeling for kunnskapsoppsummering i Kunnskapscenteret
Tittel	Vurdering av fire intensive habiliteringsprogram for barn og unge med hjerneskade: en fullstendig metodevurdering
English title	Assessment of four intensive habilitation programs for children and adolescents with brain damage: a health technology assessment
Ansvarlig	Camilla Stoltenberg, direktør
Forfattere	Ida-Kristin Ørjasæter Elvsaas, prosjektleder, <i>forsker, Folkehelseinstituttet</i> Ulrikke Højslev Lund, <i>helseøkonom, Folkehelseinstituttet</i> Liv Giske, <i>seniorforsker, Folkehelseinstituttet</i> Anna Stoinska-Schneider, <i>helseøkonom, Folkehelseinstituttet</i> Brynjar Fure, <i>forskningsleder, Folkehelseinstituttet</i>
ISBN	978-82-8082-827-9
Prosjektnummer	ID2016_011 (Nye metoder)
Publikasjonstype	Fullstendig metodevurdering
Antall sider	63 (78 inklusiv vedlegg)
Oppdragsgiver	Fagdirektørene i de regionale helseforetakene
Emneord(MeSH)	Developmental Disabilities; Disabled children; Exercise Therapy; Program Evaluation; Rehabilitation
Sitering	Elvsaas IKØ, Lund UH, Giske L, Stoinska-Schneider A, Fure B. Vurdering av fire intensive habiliteringsprogram for barn og unge med hjerneskade – en fullstendig metodevurdering. [Assessment of four intensive habilitation programs for children and adolescents with brain damage – a health technology assessment] Rapport – 2017. Oslo: Folkehelseinstituttet, 2017.

Innhold

INNHold	3
HOVEDBUdSKAP	5
SAMMENDRAG	6
KEY MESSAGES	8
EXECUTIVE SUMMARY (ENGLISH)	9
FORORD	12
ORDLISTE	14
INNLEDNING	16
Hjerneskode	16
Utfordringer knyttet til å få barn med hjerneskode	17
Habiliteringstilbudet i Norge	17
Utenlandske intensive habiliteringsprogram	19
Tidligere utredninger i Norge om utenlandske habiliteringsprogram	20
Mål og metoder	21
KLINISK EFFEKT OG SIKKERHET	23
Metode	23
Inklusjonskriterier	23
Litteratursøking	24
Artikkelutvelging	25
Vurdering av risiko for systematiske feil i enkeltstudier	25
Dataekstraksjon	25
Analyser	25
Vurdering av kvaliteten på dokumentasjonen	25
Resultater	26
Beskrivelse av studiene	27
Risiko for skjevheter i inkluderte studier	28
Effekter av tiltak	28
Oppsummering	32
HELSEØKONOMISK EVALUERING	33
Metode	33
Kostnader ved utenlandske habiliteringsprogram	34

Kostnader ved Program Intensiv Rehabilitering og Program Intensiv Rehabilitering/Trening	34
Deltakere ved rehabiliteringsprogrammene	35
Resultater	36
Totalkostnader og gjennomsnittskostnader	36
Kostnader knyttet til utenlandsprogrammene	37
Kostnader knyttet til Program Intensivert Rehabilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering	38
Oppsummering	39
ETISK VURDERING	40
Metode	40
Hensikten med tiltakene og målsetningen med metodevurderingen	40
Berørte parter og interessenter	41
Identifisering av relevante moralske spørsmål	41
Innhenting av informasjon for å besvare spørsmålene	41
Resultat	41
Barnets perspektiv	41
Foreldreperspektivet	42
Utenlandske intensive rehabiliteringsprogram	42
Helsetjenesteperspektiv og kostnader	43
Samfunnsperspektivet	43
Oppsummering	44
DISKUSJON	45
Hovedfunn	45
Kvaliteten på forskningsresultatene	46
Styrker og svakheter	47
Hvor generaliserbare er resultatene?	49
Overensstemmelse med andre oversikter	51
Resultatenes betydning for praksis	52
Kunnskapshull	53
KONKLUSJON	55
REFERANSER	56
VEDLEGG	64
Vedlegg 1. Søkestrategier	64
Vedlegg 2. Ekskluderte studier	69
Vedlegg 3. Kjennetegn ved inkluderte studier og risiko for skjevheter	70
Vedlegg 4. Liste over pågående studier	73
Vedlegg 5. Resultattabeller – inkluderte studier	73
Vedlegg 6. Gradering av kvaliteten av dokumentasjonen med GRADE	76
Vedlegg 7. Identifisering av relevante etiske og moralske spørsmål	77
Vedlegg 8. Sjekkliste for etiske og moralske spørsmål	78

Hovedbudskap

Utenlandske intensive habiliteringsprogram som Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden benyttes av familier som har barn med hjerneskade. Disse programmene er kontroversielle i medisinske fagmiljøer og de utgjør en stor kostnad for helsetjenesten og samfunnet.

- Vi fant tre små kontrollerte studier som undersøkte effekten av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program for barn og unge med hjerneskade. Ingen av studiene fant forskjell i effekt over tid mellom intervensjonene og standard behandling på grovmotorisk, finmotorisk og kognitiv funksjon, men kvaliteten på kunnskapsgrunnet var svært lav. Ingen av studiene undersøkte sikkerhet ved metodene.
- Vi fant ingen kontrollerte studier som undersøkte effekt og sikkerhet ved Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden. Vi kan derfor ikke si noe om effekt og sikkerhet av disse metodene.
- For 2015 var samfunnets totalkostnader knyttet til utenlandske habiliteringsprogram på 31 876 669 kroner. Gjennomsnittskostnadene per deltaker med familie var 426 146 kroner.
- Ut i fra et etisk perspektiv, kan offentlig finansiering av utenlandske habiliteringstilbud bidra til å legitimere bruk av ikke-dokumentert behandling. Deltakelse i enkelte av utenlandsprogrammene kan redusere barnas og familienes muligheter for normal sosial samhandling og livsutfoldelse. Til tross for dette opplever mange foreldre å bli godt ivaretatt i programmene.

Tittel:

Vurdering av fire intensive habiliteringsprogram for barn og unge med hjerneskade – en fullstendig metodevurdering

Publikasjonstype:

Fullstendig metodevurdering

En metodevurdering er resultatet av å

- innhente
- kritisk vurdere og
- sammenfatte relevante forskningsresultater ved hjelp av forhåndsdefinerte og eksplisitte metoder.

Minst ett av følgende tillegg er også med:

helseøkonomisk evaluering, vurdering av konsekvenser for etikk, jus, organisasjon eller sosiale forhold

Svarer ikke på alt:

- Ingen studier utenfor de eksplisitte inklusjonskriteriene
- Ingen anbefalinger

Hvem står bak denne publikasjonen?

Folkehelseinstituttet har gjennomført oppdraget etter forespørsel fra Fagdirektørene i de regionale helseforetakene

Når ble litteratursøket utført?

Søk etter studier ble avsluttet i november 2016.

Eksterne fagfeller:

Oddmar Ole Steinsvik, psykologspesialist, avdelingsleder, HABU, Universitetssykehuset Nord-Norge

Edith Victoria Lunde, avdelingsleder, Regionalt kompetansesenter for habilitering og rehabilitering i Helse Vest, Helse Bergen

Sammendrag

Innledning

Utenlandske intensive habiliteringsprogram som Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden er kontroversielle i medisinske fagmiljøer og de utgjør en stor kostnad for helsetjenesten og for samfunnet. I denne metodevurderingen har vi vurdert klinisk effekt og sikkerhet av utenlandsprogrammene for barn og unge med hjerneskade, gjennomført en helseøkonomisk evaluering knyttet til utenlandsprogrammene og to norske regionale tilbud, og satt søkelys på noen etiske utfordringer.

Metode

Klinisk effekt og sikkerhet: Vi utførte systematiske litteratursøk etter kontrollerte studier om de utenlandske intensive habiliteringsprogrammene i ni databaser, og i utenlandsprogrammernes nettsider. Vi vurderte studienes metodiske kvalitet med Risk-of-Bias-verktøyet, sammenfattet resultatene deskriptivt og vurderte det samlede resultatet ved hjelp av Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation (GRADE).

Helseøkonomisk evaluering: Vi utførte en kostnadsbeskrivelse av de fire intensive utenlandsprogrammene, og to norske intensive habiliteringsprogram som komparator. Kostnadsbeskrivelsen inkluderte estimat for total kostnader og gjennomsnittskostnad per deltaker med familie. Kostnader ble beskrevet ut i fra et helsetjenesteperspektiv, med en tidshorisont på 1 år.

Etisk vurdering: Vi brukte en trinnvis metode som inkluderte identifisering av berørte parter, identifisering av moralske spørsmål, belysning av spørsmål via litteratursøk, høringer og brukermedvirkning, samt oppsummering og sammenfatning av prosessen.

Resultat

Klinisk effekt og sikkerhet: Vi fant tre små kontrollerte studier med til sammen 94 deltakere som vurderte effekten av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program sammenlignet med standard behandling. Ved studieslutt fant ingen av studiene forskjell i effekt på grovmotorisk, finmotorisk og kognitiv funksjon mellom intervensjonene og kontrolltiltakene, men kvaliteten på kunnskapsgrunnet var svært lavt vurdert ved hjelp av Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation. Ingen av studiene vurderte sikkerhet ved tiltakene.

Vi fant ingen kontrollerte studier som hadde undersøkt effekt og sikkerhet ved Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden.

Helseøkonomisk evaluering: I 2015 utgjorde samfunnets kostnader knyttet til de fire utenlandsprogrammene til sammen 31 876 669 kroner. Gjennomsnittskostnaden per deltaker med familie var 426 146 kroner. De to norske programmene hadde i 2015 en beregnet total kostnad på 9 675 202 kroner, og en gjennomsnittskostnad per deltaker med familie på 225 005 kroner.

Etisk vurdering: En praksis der pasienter som deltar i utenlandske habiliteringsprogram får økonomisk støtte til deltakelse og til trening i mellomperioder, kan bidra til å legitimere bruk av ikke-dokumentert behandling og svekke pasientenes mulighet til normal sosial deltakelse.

Diskusjon

Klinisk effekt og sikkerhet: Til tross for grundige litteratursøk i ni databaser og gjennomgang av utenlandsprogrammenes nettsider, fant vi kun tre studier om Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program som hadde kontrollgrupper. To av studiene var over 35 år gamle. De inkluderte studiene benyttet ulike verktøy for vurdering av effekt, og mangel på beskrivelse av variasjon i utfallsdataene (standardavvik eller konfidensintervall) i to av studiene forhindret sammenslåing av data i meta-analyser. Vi identifiserte ingen studier om Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation eller Kozijavkin-metoden som hadde kontrollgruppe.

Helseøkonomisk evaluering: Fravær av faglige retningslinjer og manglende dokumentasjon for effekt av de utenlandske habiliteringsprogrammene gjorde at det ikke var hensiktsmessig å utføre en fullstendig økonomisk evaluering.

Etisk vurdering: Bruk av de utenlandske habiliteringstilbudene reiser flere moralske spørsmål knyttet til de ulike berørte partene. Vårt mål har vært å belyse noen etiske spørsmål knyttet til problemstillingen, men tematikken kunne vært bredere belyst i en fullstendig etisk analyse.

Konklusjon

Ingen av de tre studiene om Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program fant forskjell i effekt på grovmotorisk, finmotorisk og kognitiv funksjon over tid sammenlignet med standard behandling, men kvaliteten på dokumentasjonsgrunnlaget var svært lav. Vi kan ikke konkludere om sikkerhet ved Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program på grunn av manglende data. Mangel på kontrollerte studier gjør at vi ikke kan konkludere om effekt og sikkerhet av Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden.

Gjennomsnittskostnadene per pasient med hjerneskade og deres familie er om lag dobbelt så høye for utenlandske habiliteringstilbud som for to norske intensive habiliteringstilbud.

Ut i fra et etisk perspektiv kan fortsatt offentlig finansiering av utenlandske intensive habiliteringstilbud bidra til å legitimere bruk av ikke-dokumentert behandling. Enkelte av programmene kan redusere barnas og familienes muligheter for normal sosial samhandling og livsutfoldelse. Til tross for dette opplever mange foreldre å bli godt ivaretatt i programmene.

Key messages

Intensive rehabilitation programs like Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, the Institutes for the Achievement of Human Potential program, the Family Hope Center program and the Kozijavkin method used by families who has children with brain damage are controversial among medical professionals and represent major costs to health care services and society.

- We found three small controlled studies that examined clinical effect of the Institutes for the Achievement of Human Potential program and the Family Hope Center program for children and adolescents with brain damage. None of the studies found differences in effect over time on gross motor, fine motor and cognitive function between interventions and standard care, but the evidence had very low quality. Neither of the studies examined safety.
- We found no controlled trials that examined clinical efficacy and safety of Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation and the Kozijavkin method. That implies that we do not know the clinical efficacy and safety of these programs.
- For 2015, the society's total costs related to foreign habilitation programs were 31,876,669 million Norwegian kroner, while the mean cost per participant with family was 426,146 Norwegian kroner.
- Based on ethical perspectives, public funding of participation in foreign habilitation programs may contribute to legitimization of non-documented treatment. Participation in some intensive programs can also reduce children and families' opportunities for normal social interaction and self-expression. Despite this, many parents experience that they are well taken care of in the programs.

Title:

Assessment of four intensive habilitation programs for children and adolescents with brain damage – a health technology assessment

Type of publication:**Health technology assessment**

Health technology assessment (HTA) is a multidisciplinary process that summarizes information about the medical, social, economic and ethical issues related to the use of a health technology in a systematic, transparent, unbiased, robust manner. Its aim is to inform the development of safe, effective health policies that are patient focused and that seek to achieve best value.

Doesn't answer everything:

- Excludes studies that fall outside of the inclusion criteria
 - No recommendations
-

Publisher:

Norwegian Institute of Public Health

Updated:

Last search for studies:
November 2016

Peer review:

Oddmar Ole Steinsvik, psychology specialist, Department manager, University Hospital of North Norway

Edith Victoria Lunde, Department manager, Haukeland University Hospital

Executive summary (English)

Background

Some children and adolescents with brain damage and their families use intensive rehabilitation programs like Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, the Institutes for the Achievement of Human Potential program, the Family Hope Center program and the Kozijavkin method. However, the programs are controversial among medical professionals and represent major costs to health care services and society.

Objective

In this health technology assessment, we assessed the clinical efficacy and safety of intensive programs for children and adolescents with brain damage, performed a health economic evaluation related to the programs and two Norwegian regional programs as comparator, and highlighted some ethical challenges.

Method

Clinical efficacy and safety: We performed systematic literature searches in nine databases for controlled studies on the above-mentioned intensive habilitation programs. We critically assessed studies using the Risk of Bias-tool, descriptively summarized outcome data and graded overall results using Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation.

Health Economic Evaluation: We described costs of the four intensive habilitation programs, and two Norwegian intensive rehabilitation program as comparator. Cost description included an estimate for total costs and mean costs per participant with family. We described costs in a healthcare perspective, with a time horizon of 1 year.

Ethical assessment: We used a stepwise method that included identification of stakeholders, identification of moral questions, illuminating questions through literature search, hearings and user involvement, and summarization of process.

Results

Clinical efficacy and safety: We found three small controlled trials involving 94 participants that assessed the effectiveness of the Institutes for the Achievement of Human Potential program and the Family Hope Center program compared to standard treatment. Over time, none of the studies found difference in gross motor, fine motor and cognitive function between the interventions and control conditions but the evidence

had very low quality assessed by the Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation (GRADE). None of the studies assessed safety outcomes of the programs.

We found no controlled studies on efficacy and safety of Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation and the Kozijavkin method.

Health Economic Evaluation: In 2015, the total costs of the four intensive programs were 31,876,669 Norwegian kroner. The mean cost per participant with family was 426,146 Norwegian kroner. Two Norwegian intensive programs used as comparison had in 2015 an estimated total cost of 9,675,202 million Norwegian kroner and a mean cost per participant with family of 225,005 Norwegian kroner.

Ethical assessment: A practice in which patients participating in foreign intensive habilitation programs receive public funding for both participation in and training between program participation may legitimize the use of non-documented treatment and in some cases impair patients' possibility for normal social participation.

Discussion

Clinical efficacy and safety: Despite thorough searches in nine databases and review of the programs' websites, we found only three studies with control groups on the Institutes for the Achievement of Human Potential program and the Family Hope Center program. Two of the studies were over 35 years old. The included studies used different tools for evaluation of efficacy, and lack of description of the variation in outcomes data (standard deviation or confidence interval) in two of the studies prevented synthesizing of data in meta-analysis. We identified no controlled studies on Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation or the Kozijavkin method.

Health Economic Evaluation: Absence of guidelines and lack of documentation for effectiveness of the foreign intensive habilitation programs indicated that it was not relevant to perform a full economic evaluation.

Ethical assessment: Extensive use of foreign habilitation programs raises several moral questions. Our goal was to shed light on some ethical questions related to this issue, but the topic could have been wider illuminated in a complete ethical analysis.

Conclusion

None of the studies on the Institutes for the Achievement of Human Potential program and the Family Hope Center program found difference in the effect on gross motor, fine motor and cognitive function over time, compared to standard treatment, but the quality of the documentation was very low. Lack of data prevents us from concluding on safety of the Institutes for the Achievement of Human Potential program and the Family Hope Center program. Lack of controlled studies indicates that we cannot conclude on the efficacy and safety of Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation and the Kozijavkin method.

The mean cost per patient with brain damage and their family is about twice as high for foreign habilitation compared to two Norwegian intensive habilitation programs.

Based on an ethical perspective, the practice of public funding of participation in foreign habilitation programs may contribute to legitimization of non-documented treatment. Participation in some intensive programs can also reduce children and families' opportunities for normal social interaction and self-expression. Despite this, many parents experience that they are well taken care of in the programs.

Forord

Gjennom Nye metoder har vi på oppdrag fra fagdirektørene i de regionale helseforetakene vurdert effekt og sikkerhet av de intensive habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden for barn og unge med hjerneskade. I tillegg har vi utført en helseøkonomisk vurdering og drøftet noen etiske spørsmål knyttet til programmene og gjennomføringene av dem. Fagdirektørene ønsket også en vurdering av Petø-metoden. Vurdering av Petø-metoden publiseres i en egen metodevurdering.

Rapporten er ment å hjelpe beslutningstakere i helsetjenesten til å fatte velinformerte beslutninger som kan forbedre kvaliteten i helsetjenestene. Metodevurderingen er utarbeidet etter kriterier beskrevet i Kunnskapssenteret i Folkehelseinstituttets metodebok «Slik oppsummerer vi forskning» (1). Det innebærer blant annet at vi kan bruke standardformuleringer når vi beskriver metoden, resultatene og diskusjonen av funnene.

Prosjektgruppen har bestått av:

- Ida-Kristin Ørjasæter Elvsaas, forsker og prosjektleder, Folkehelseinstituttet
- Liv Giske, seniorforsker, Folkehelseinstituttet
- Ulrikke Højslev Lund, helseøkonom, Folkehelseinstituttet
- Anna Stoinska-Schneider, helseøkonom, Folkehelseinstituttet
- Elisabeth Hafstad, forskningsbibliotekar, Folkehelseinstituttet
- Doris Tove Kristoffersen, statistiker, Folkehelseinstituttet
- Hilde Tinderholt Myrhaug, seniorforsker, Folkehelseinstituttet

I prosjektet benyttet vi en ekstern gruppe bestående av representanter fra de regionale helseforetakene, høyskolesektoren og Helsedirektoratet, i tillegg til brukerrepresentanter:

- Sigrid Østensjø, professor, Høgskolen i Oslo og Akershus
- Petra Aden, overlege, PhD, Oslo universitetssykehus
- Ida E. Vestrheim, enhetsleder, Can.san, Sørlandet sykehus HF
- Sølvi Holmgren, seniorrådgiver, Helsedirektoratet
- Hanne Fjerdingby Olsen, Handikappede Barns Foreldreforening
- Hege Tegler, Handikappede Barns Foreldreforening

Den eksterne gruppen har bidratt med bakgrunnsinformasjon om pasientgruppen og tiltakene, og gitt innspill til inklusjonskriterier, relevant litteratur, innledningskapittel, tolking av resultater, diskusjon og konklusjon.

Vi retter stor takk til Oddmar Ole Steinsvik ved Universitetssykehuset i Nord-Norge (UNN Tromsø) og Edith Victoria Lunde ved Haukeland universitetssykehus, for ekstern fagfellevurdering av prosjektplan og rapport.

Vi retter også takk til Ingvil Von Mehren Sæterdal og Liv Merete Reinar, begge forskningsledere ved FHI, for intern fagfellevurdering av prosjektplan og rapport.

Alle forfattere og fagfeller har fylt ut et skjema som kartlegger mulige interessekonflikter. Ingen oppgir interessekonflikter.

Folkehelseinstituttet tar det fulle ansvaret for synspunktene som er uttrykt i rapporten.

Signe Agnes Flottorp
avdelingsdirektør

Brynjar Fure
seksjonsleder

Ida-Kristin Ørjasæter Elvsaa
prosjektleder

Ordliste

Begrep	Forklaring
<i>Begrep knyttet til habilitering</i>	
Habilitering	Planlagte prosesser med klare mål og virkemidler, hvor flere aktører samarbeider om å gi nødvendig bistand til pasientens og brukerens egen innsats for å oppnå best mulig funksjons- og mestringsevne, selvstendighet og deltakelse sosialt og i samfunnet (2). Habilitering omfatter barnets totale livssituasjon, og er summen av alle tiltak for mestring av livssituasjonen. Den er livsløpsorientert, og setter barnets og familiens behov og forutsetninger i fokus (3).
Intensiv habilitering	Brukes ofte om intensiv trening eller intensiv behandling. Tiltakene er gjerne fokuserte, og skal bidra til barnets motoriske, kommunikasjonsmessige, sosiale og/eller mentale utvikling. Tiltakene gis i tidsavgrensede perioder (3). Omfanget av intensiv habilitering kan variere fra fagmiljø til fagmiljø, men kan defineres som trening mer enn to ganger per uke (4).
<i>Begrep knyttet til hjerneskade</i>	
Hjerneskade	Inkluderer både medfødt og ervervet hjerneskade som gir betydning for funksjonssvikt (motoriske, perseptuelle, kognitive og/eller sosiale funksjoner) (3).
Medfødt hjerneskade	En samlebetegnelse for en rekke tilstander der hjernefunksjonen er forstyrret på grunn av påvirkninger før, under eller kort tid etter fødselen. Dette inkluderer sirkulasjonsforstyrrelser, utviklingsforstyrrelser, hjerneanomalier, genetiske faktorer, infeksjoner, toksiske påvirkninger eller prematuritet (3). I denne rapporten inkluderer dette diagnosene cerebral parese (CP), hydrocefalus, mikrokefali, og moderat til alvorlig mental retardasjon.
Ervervet hjerneskade	En samlebetegnelse på skader som oppstår i en del av sentralnervesystemet (3). Dette inkluderer hjerneskade forårsaket av tumor, traume, blødning, surstoffmangel eller infeksjon.
<i>Forkortelser knyttet til intensive habiliteringsprogram</i>	
ABR	Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation. Beskrives som «ABR-terapi metoden» og «ABR-teknikken» av ABR Danmark (5). Metoden ble utviklet av Leonid Blyum (6). Forkortelsen ABR ble også benyttet i Myrhaug og medarbeideres utredning fra Kunnskapscenteret i 2008 (3).
IAHP	Institutes for the Achievement of Human Potential. Bli også omtalt som Doman-metoden. IAHP ønsker selv ikke denne benevnelsen og skriver på sine nettsider: « <i>It is certainly understandable that people call The Institutes work "The Glenn Doman Method."</i> However, Glenn himself never used this term and discouraged others from doing so. He always said "There is no "Doman Method," there is the program of The Institutes." » (7). Forkortelsen IAHP ble benyttet i Myrhaug og medarbeideres utredning fra Kunnskapscenteret i 2008 (3) og i de tre studiene som vi har inkludert i kunnskapsgrunnlaget i denne metodevurderingen (8-10).
FHC	The Family Hope Center. Forkortelsen FHC brukes både av senteret selv f.eks ved beskrive av fremgangsmåten i metoden: « <i>Step 4 – Build Your FHC Plan</i> » (11), og i

	studien av von Tetzchner og medarbeidere der effekten av programmene i regi av FHC og IAHP studeres (10). Forkortelsen FHC ble også benyttet i Myrhaug og medarbeideres utredning fra Kunnskapsenteret i 2008 (3).
Kozijavkin-metoden	Intensive Neurophysiological Rehabilitation System, tilbys av International Clinic of Rehabilitation. Metoden beskrives på klinikkens nettsider som «Kozijavkin method» (12). Benevnelsen Kozijavkin-metoden ble også benyttet i Myrhaug og medarbeideres utredning fra Kunnskapsenteret i 2008 (3).
PIH	Program Intensivert Habilitering, tilbys ved Sørlandet sykehus
PITH	Program Intensiv Trening/Habilitering, tilbys ved Oslo universitetssykehus
<i>Begrep/forkortelser knyttet til noen måleverktøy</i>	
GMFM	Forkortelse for "Gross Motor Function Measure", som er et observasjonsinstrument laget og validert for å kunne måle forandring i <u>grovmotoriske ferdigheter</u> over tid hos barn med cerebral parese. GMFM er en standardisert observasjon som finnes i to versjoner; GMFM-88 og GMFM-66 som inkluderer 66 av 88 testledd. I GMFM-88 summeres scorene i en prosent score for hver av de fem dimensjonene: <u>Lying and rolling; Sitting, Crawling and kneeling; Standing; and Walking, running and jumping</u> , og en totalscore. Jo høyere poengsum, jo bedre grovmotoriske ferdigheter. (13).
QUEST	Quality of upper extremity skills test is an outcome measure designed to evaluate <u>movement patterns and hand function in children</u> with cerebral palsy. The QUEST is both reliable and valid. The purpose of the QUEST is to evaluate quality of upper extremity function in four domains: <u>dissociated movement, grasp, protective extension, and weight bearing</u> . Validation studies have been completed with children with cerebral palsy, aged 18 months to 8 years. 36 items assessing dissociated movements, grasp, protective extension, and weight bearing. Percentage score is calculated, <u>total and subscores</u> . Administration requires 30 - 45 minutes. QUEST is a reliable and valid measure for evaluating quality of movement in children with cerebral palsy. Items are related to quality of movement, not to chronological age. It is administered within a play context. http://www.canchild.ca/en/measures/quest.asp . (13).
Bayley motor developmental scale	The Bayley Scales of Infant Development (BSID-III is the current version) is a standard series of measurements originally developed by psychologist Nancy Bayley used primarily to assess the motor (fine and gross), language (receptive and expressive), and cognitive development of infants and toddlers, ages 0-3. This measure consists of a series of developmental play tasks and takes between 45 - 60 minutes to administer. <u>Three domains: Motor Scale, Mental Scale, and Behavior Scale. Raw scores of successfully completed items are converted to scale scores and to composite scores</u> . These scores are used to determine the child's performance compared with norms taken from typically developing children of their age (in months). (13). http://en.wikipedia.org/wiki/Bayley_Scales_of_Infant_Development .

Innledning

Barn og unge med hjerneskade har krav på et tilbud om habilitering og rehabilitering. Pasientenes rettigheter er hjemlet i Lov om pasient- og brukerrettigheter (14) og regulert gjennom Forskrift om habilitering og rehabilitering, individuell plan og koordinator (2). Forskriften skal «sikre at personer som har behov for sosial, psykososial eller medisinsk habilitering og rehabilitering, tilbys og ytes tjenester som kan bidra til stimulering av egen læring, motivasjon, økt funksjons- og mestringsevne, likeverdighet og deltakelse» (2). Videre skal det sikres brukermedvirkning, at tjenestene inngår i kommunenes helse- og omsorgstilbud, og at de regionale helseforetakene tilbyr habiliterings- og rehabiliteringstilbud i spesialisthelsetjenesten, herunder også intensiv trening (2). Barns rett til medvirkning og informasjon er også nedfelt i FNs barnekonvensjon (15).

Hjerneskade

Hjerneskade kan deles i medfødt og ervervet hjerneskade. Hjerneskader er skader i hjernen som kan gi funksjonssvikt i motoriske, perseptuelle, kognitive og/eller sosiale funksjoner (3). Det er skadens plassering og omfang som er avgjørende for barnets symptomer, funksjonsnivå og behov for hjelp (16).

Medfødt hjerneskade

Medfødt hjerneskade er en samlebetegnelse for flere tilstander der hjernefunksjonen er forstyrret på grunn av påvirkninger før, under eller kort tid etter fødselen (3). Dette inkluderer sirkulasjonsforstyrrelser, utviklingsforstyrrelser, hjerneanomalier, genetiske faktorer, infeksjoner, toksiske påvirkninger eller prematuritet (3). Vanlige diagnoser er cerebral parese (CP), hydrocefalus, mikrokefali og moderat til dyp psykisk utviklingshemming (3).

Ervervet hjerneskade

Ervervet hjerneskade er en betegnelse på skader som oppstår i en del av sentralnervesystemet etter fødsel og etter at hjernen først har hatt en normal utvikling (3, 17). Dette inkluderer hjerneskade forårsaket av tumor, traume, blødning, surstoffmangel eller infeksjon (3). Skaden kan gi vedvarende endringer i kognitiv, psykisk og atferdsmessig funksjon (17).

Utfordringer knyttet til å få barn med hjerneskade

Å få barn med hjerneskade gjør at familien stilles ovenfor ekstra utfordringer både i daglige situasjoner med barnet, og i samhandling med tjenestene (18). Foreldrene bruker mye tid på å følge opp at rettigheter i skole, fritid og i hjemmet blir oppfylt, og mødrene har lavere yrkesdeltakelse og jobber oftere deltid enn andre mødre (19). Merbelastningen som følger av å få barn med funksjonsnedsettelse kan knyttes til et forhøyet stressnivå hos foreldre (20, 21). Dette kan påvirke deres omsorgs- og mestringsevne, og derigjennom barnets helse, utvikling og velvære (20, 22).

Norsk institutt for forskning om oppvekst, velferd og aldring publiserte i 2016 en rapport om foreldres erfaringer med det offentlige hjelpeapparatet, finansiert av Barne-, ungdoms- og familiedirektoratet (23). Resultatene baserer seg på litteraturgjennomgang fra 2009 til 2016, samt intervjuer med ti foreldre som har barn med ulike funksjonsnedsettelser. Forfatterne fant at familier som hadde barn der funksjonsnedsettelsen ble oppdaget tidlig var mer fornøyd og følte at de enklere fikk oppfølging enn de som hadde barn der funksjonsnedsettelsen ble oppdaget senere (23).

Erkjennelsen av familiens betydning for barns utvikling og læring ligger til grunn for en politisk og faglig enighet om at tjenester til barn med funksjonsnedsettelse bør forankres i et familieperspektiv. I tråd med sentrale prinsipper for familiesentrert tjenesteyting ønsker mange foreldre å kunne ta aktivt del i utforming og gjennomføring av tiltak som inngår i barnets habilitering.

Habiliteringstilbudet i Norge

Det finnes ingen faglige retningslinjer for habilitering av barn med hjerneskade nasjonalt eller internasjonalt. Derimot kjennetegnes feltet av at trenings- og habiliteringsprogrammer er forankret i ulike teoretiske forståelser og tilnærminger (24). I perioden 2002-2008 tildelte Helsedirektoratet midler til utviklingsprosjekter innen barnehabilitering i Norge. I denne perioden ble mange av dagens habiliteringstilbud utviklet og satt i drift, inkludert flere regionale tilbud om intensiv habilitering.

I 2013 utførte Rambøll Management Consulting en kartlegging av intensiv habilitering av barn og unge i Norge, på oppdrag fra Helsedirektoratet (25). Inkludert i dette var kartlegging av tilbudenes innhold, organisering, kjennskap til tilbudene i kommunene, samarbeid mellom helseforetak og kommuner, og om eksisterende tilbud samsvarer med etterspørselen. De fant at alle de regionale helseforetakene hadde et tilbud om intensiv habilitering, men at omfang, innhold og organisering av tilbudet var ulikt (25). Tilbudene var primært rettet mot de yngste barna. Barn i skolealder hadde dårligere tilbud, eller manglet tilbud. Kartleggingen kunne ikke si noe om tilbudene som gis i Norge samsvarer med behovet for intensiv habilitering. De hadde imidlertid grunn til å tro at behovet var større enn tilbudet ettersom flere foreldre søkte seg til og brukte private eller utenlandske tilbud (25).

Regionale tilbud om intensiv habilitering

Utredningen fra Rambøll (25) beskrev tre regionale tilbud om intensiv habilitering, to i Helse Sør-Øst og ett i Helse Nord. Det finnes også andre tilbud om intensiv habilitering i Norge, men det ligger utenfor denne rapportens mandat å kartlegge disse tilbudene. Vi beskriver her kort tilbudene i Helse Sør-Øst, Program Intensivert Habilitering (PIH) og Program Intensiv Trening/Habilitering (PITH). Disse programmene vil senere bli brukt som eksempler på komparator i den helseøkonomiske analysen i denne metodevurderingen.

Program Intensivert Habilitering (PIH) er et helhetlig, tverrfaglig habiliteringstilbud for førskolebarn i alderen 2-5 år med CP, lignende hjerneskader, eller funksjonsnedsettelser (26). Program Intensivert Habilitering er organisert som en egen enhet, og lokalisert ved habiliteringsseksjonen for barn og unge (HABU) ved Sørlandet sykehus. Program Intensivert Habilitering ble etablert som regionalt tilbud i 2007, etter en prosjektperiode fra 2002 til 2006. Fokusområdene til tilbudet er egenledelse, motorikk og kommunikasjon, hvor barnet skal stå i sentrum (26). Programmet strekker over ett knapt år, og er organisert med 3-4 gruppesamlinger av 1-2 ukers varighet (totalt 6 uker opphold for deltakerne). Programmets innhold retter seg direkte mot barnet, mot foreldre og barnets lokale fagfolk. Et trenings- og stimuleringsteam dannes rundt det enkelte barn og de gjennomfører systematiske trenings- og stimuleringstiltak i lokalmiljøet mellom samlingene. I tillegg til å gjennomføre intensiverte habiliteringsprogram, har Program Intensivert Habilitering i oppgave å drive forskning og fagutvikling (26).

Program Intensiv Trening/Habilitering (PITH) tilbys ved Oslo universitetssykehus (OUS), og startet opp som et prosjekt i 2005 (27). Det er organisert som egen enhet under Seksjon for nevrohabilitering - barn, Ullevål, og er rettet mot aldersgruppen 0-6 år. Program Intensiv Trening/Habilitering er ikke diagnoseavhengig, men ekskluderer barn med gjennomgripende utviklingsforstyrrelser og barn med progredierende lidelser. De tre hovedområdene er kommunikasjon, motorikk og spising. Forløpet har en periode på 10 måneder, inkludert 3 samlinger på 3 + 2 + 2 uker (27).

Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering er ment som supplement til det ordinære habiliteringstilbudet i spesialisthelsetjenesten for Helse Sør-Øst, men gjestepasienter fra andre helseregioner kan søke om deltakelse (26, 27). Ved Universitetssykehuset Nord-Norge (UNN) Tromsø, prøves det ut en ny modell for intensiv habilitering for barn i Helse Nord (28). Utprøvingen skjer med prosjektmidler fra Helsedirektoratet. Modellen er i stor grad basert på tilbudet ved Sørlandet Sykehus (28).

Finansiering

Ulike tilbud i regionene, og foreldres ønske om mer trening og tettere oppfølging kan være mulige årsaker til at enkelte velger å søke om deltakelse i utenlandske intensive habiliteringsprogram (25). Helse- og omsorgsdepartementet har, med hjemmel i folketrygdloven § 5-22 andre ledd, gitt forskrift om bidrag til reiser og opphold for å delta i programmene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden

(29). Søknad om støtte sendes til Helseøkonomiforvaltningen (Helfo) (29). For å få innvilget støtte, må pasientens lege bekrefte at behandlingen anses som faglig forsvarlig (29). I tillegg må de regionale helseforetakene gi en uttalelse om at eksisterende habiliteringstilbud i Norge, er mangelfullt (29). Deltakerne benytter tilbudene i utlandet én til to ganger i året (30).

Utenlandske intensive habiliteringsprogram

Nedenfor har vi kort beskrevet de fire utenlandske intensive habiliteringsprogrammene som inngår i denne metodevurderingen. Beskrivelsene er i hovedsak hentet fra programmenes nettsider. De utenlandske instituttene tilbyr program for barn i alle aldersgrupper. Folkehelseinstituttet har ikke kvalitetsvurdert informasjonen og beskrivelsene som fremkommer på nettsidene.

Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation

Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation (ABR) er en manuell behandling utviklet av Leonid Blyum. Gjennom utprøving erfarte han at muskel- og skjelettdeformiteter kunne behandles gjennom et program for å styrke pasientens muskulatur. Metoden blir beskrevet som *“Strengthening had to be passive – done by ‘external’ person – because a CP child or any other person with severe motor impairment doesn’t have much of a voluntary control of his own in the areas where they need strengthening the most”* (6). Metoden gjennomføres hovedsakelig som hjemmebaserte treningsprogram med trening hver dag. Pasientene blir behandlet av foreldrene eller foresatte (6). Til sammen skal pasientene behandles 20 timer i uken (3). Hver pasient får øvelsene individuelt tilpasset og justert (31). ABR International har sentre i flere land, deriblant i Danmark og Belgia. Familiene tilbys veiledning flere ganger årlig ved et av ABR-sentrene.

Institutes for the Achievement of Human Potential program

Institutes for the Achievement of Human Potential program (IAHP) ble etablert av Glenn Doman i Philadelphia, USA i 1955 (32). Metoden bygger på en teori om at et individ må gå gjennom ulike utviklingsfaser, og at en skade i de delene av hjernen som styrer en eller flere tidlige utviklingsfaser kan blokkere utviklingen av de delene av hjernen som ikke er skadet (10). Programmet retter seg derfor mot hjernen, og ikke symptomene på hjerneskaden (32). Målet er å omprogrammere friske hjerneceller til å ta over funksjonen til hjerneceller som har blitt skadet ved en hjerneskade (3). Det er en helhetlig behandlingsmetode med elementer som ernæring, og intellektuell, sosial og motorisk trening (33). Programmet gjennomføres hovedsakelig i hjemmet med foreldre som behandlerne (32). Foreldrene skal stimulere barna sine flere timer daglig (3). Programmet består av intensive halvtimersøkter som gjentas opp mot 25-30 ganger per dag, syv dager i uka, i ett eller flere år (10). I tillegg skal barnet følges opp hver 6. måned på instituttet for evaluering og justering av treningen (32). Etter en to-årig opplæringsperiode blir foreldrene sertifisert som «Child Brain Developmentalists at the Quantified Parent Level» (32). Institutes for the Achievement of Human Potential har institutter flere steder i verden. I Norge finnes det en egen forening for familier som benytter Institutes for the Achievement of Human Potential program (33).

Family Hope Center program

Family Hope Center program (FHC) er lokalisert i Philadelphia, USA. Family Hope Center ble grunnlagt av Matthew og Caropl Newell, som begge har jobbet med Institutes for the Achievement of Human Potential program (34). I likhet med Institutes for the Achievement of Human Potential program, er Family Hope Center program ment å rette seg mot hjernen og de områdene i hjernen som er skadet. I løpet av et to-dagers opphold ved senteret blir barnets utvikling evaluert, og hjernens dysfunksjon lokalisert (11). Det blir så utviklet et spesialtilpasset behandlingsprogram med fysiske, fysiologiske, emosjonelle, sosiale og ernæringsmessige aspekter som retter seg mot den eller de delene av hjernen som er skadet. Etter hjemreise får familiene støtte, veiledning og løpende rådgivning (11). Familiene velger selv hvor mye de vil trene, men strukturert, målrettet og hyppig stimulering er avgjørende for et godt resultat (34). Fire ganger årlig skal det avgis skriftlig rapport om barnets trening, progresjon, helse og om hvordan familien trives med hjemmetreningen. Det skal også tas video av barnet mens det trener (34). Family Hope Center gir tilbakemeldinger på materialet. I tillegg følges familiene opp ved et Family Hope senter to ganger i året. Treningsprogrammet gir familiene rom for å benytte en deltids plass ved en lokal barnehage eller lignende (34). Family Hope Center holder kurs i flere land, deriblant i Danmark.

Kozijavkin-metoden

Kozijavkin-metoden (Intensive Neurophysiological Rehabilitation System) er et rehabiliteringsprogram som består av flere komponenter. Metoden tilbys av International Clinic of Rehabilitation (ICR) og er utviklet av professor Volodymyr Kozyavkin (12). Hovedkomponenten i metoden består av manuell korrigerende av leddene og ryggraden. Dette kombineres med mobiliserende øvelser, refleksterapi (triggerpunktstimulering med strøm), ulike former for massasje, akupressur, rytmiske gruppeøvelser og mekanoterapi (styrkeøvelser med ulike apparater) (12). Metoden foregår i to faser – the Intensive Correction Subsystem (2 uker ved klinikken) og the Stabilization and Effects Potentiating Subsystem (6-8 måneder med hjemmebasert trening) (12). Den hjemmebaserte treningen blir fastsatt individuelt (treningsvolum ikke angitt) (35). Evaluering og veiledning gis gjennom to årlige besøk ved Intensive Neurophysiological Rehabilitation klinikken (3). Det finnes to Intensive Neurophysiological Rehabilitation klinikker i Ukraina, og en på Kypros (12).

Tidligere utredninger i Norge om utenlandske habiliteringsprogram

I 1999 ba det daværende Sosial- og helsedepartementet Statens helsetilsyn om å nedsette en arbeidsgruppe for faglig vurdering av alternative treningsopplegg i utlandet for barn med hjerneskader (16). Bakgrunnen var at Sosial- og helsedepartementet hadde gitt støtte til deltakelse i utenlandske intensive treningsopplegg for noen familier som hadde barn med hjerneskade. De ønsket derfor en utredning av faglige spørsmål knyttet til disse metodene. Arbeidsgruppen begrenset mandatet til vurdering av Institutes for the Achievement of Human Potential program (i utredningen kalt Doman-metoden) og Petø-metoden. Rapporten ble publisert i januar 2000. Konklusjonen i rapporten var blant annet: «Arbeidsgruppens samlede faglige vurdering er at den ikke kan anbefale Doman-metoden som et alternativt habiliteringstilbud i Norge» (16).

I 2002 ble det daværende Sosial og helsedirektoratet bedt av Helsedepartementet å nedsette en arbeidsgruppe der mandatet var å gi en faglig vurdering av habiliteringstilbudet barn med funksjonshemninger får i Norge i de tilfellene der familiene ønsket å delta på programmer i regi av Institutes for the Achievement of Human Potential i Philadelphia (36). De ble også bedt om å vurdere om habiliteringstilbudet i Norge var innenfor faglige forsvarlige helsetjenester, og komme med forslag om eventuelle forbedringer av habiliteringstilbudet (36). I rapporten oppsummerte gruppen flere forhold som kunne forklare hvorfor enkelte foreldre velger alternative habiliteringsprogrammer for barna sine. De kom også med forslag til hvordan disse forholdene kunne brukes til å videreutvikle og forbedre det offentlig hjelpeapparatet (36).

I 2007 mottok Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten (nå Folkehelseinstituttet) et oppdrag fra Sosial- og helsedirektoratet (nå Helsedirektoratet): «*Stortinget ber Regjeringen sikre faglig uavhengig gjennomgang av de ulike metodene som benyttes ved habilitering av barn med hjerneskade, og at Kunnskapssenteret blir tildelt denne oppgaven*» (3). Forfatterne av rapporten fant ingen systematiske oversikter eller kontrollerte studier som hadde undersøkt effekten av utenlandske habiliteringsprogrammer (Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden), og de kunne derfor ikke trekke konklusjoner om effekten av disse (3). Det ble etterlyst mer og bedre forskning innen feltet generelt, og knyttet til de utenlandske programmene spesielt.

Helsedirektoratet uttrykker i handlingsplan for habilitering av barn og unge fra 2009 at de har forståelse for at foreldre til barn med funksjonsnedsettelse ønsker å prøve alternative behandlingsmetoder (37). De understreker samtidig at «*de behandlingsmetodene som brukes under habilitering av barn og unge med funksjonsnedsettelse i det norske hjelpeapparatet, skal på lik linje med andre behandlingsmetoder som brukes av helsetjenesten, være basert på forskning som dokumenterer den behandlingseffekten metoden er ment [å] ha*» (37).

Mål og metoder

Målet med denne metodevurderingen er at den skal inngå som grunnlag for de regionale helseforetakene i Beslutningsforum for Nye metoder.

I metodevurderingen har vi:

- 1) Systematisk oppsummert og kvalitetsvurdert tilgjengelig forskning om klinisk effekt og sikkerhet ved de intensive habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden for barn og unge med hjerneskade (0-18 år)

- 2) Utført en helseøkonomisk evaluering som kostnadsbeskrivelse av de fire intensive utenlandske habiliteringsprogrammene og to norske intensive habiliteringsprogram som komparator
- 3) Drøftet noen etiske/moralske spørsmål knyttet til de fire intensive utenlandske habiliteringsprogrammene for barn og unge med hjerneskade

Klinisk effekt og sikkerhet

METODE

Metoden for vurdering av klinisk effekt og sikkerhet går i korthet ut på å formulere forskningsspørsmål og utforme en PICO (populasjon (P), tiltak (I), sammenlikning (C) og utfall (O)), søke etter litteratur, velge ut studier, vurdere studienes metodiske kvalitet, hente ut data, sammenstille data og gradere det totale kunnskapsgrunnlaget (1).

Inklusjonskriterier

Studiedesign:

Randomiserte kontrollerte studier, ikke-randomiserte kontrollerte studier med før- og etter-målinger

Populasjon: Barn og unge (0-18 år) med hjerneskade

Tiltak:

- Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation
- Institutes for the Achievement of Human Potential program
- Family Hope Center program
- Kozijavkin-metoden

Sammenlikning: Andre habiliteringstiltak, standard behandling eller ingen behandling

Utfall:

Primære utfallsmål:
For barna:

- Grovmotorisk funksjon
- Håndfunksjon / finmotorikk
- Kognitiv funksjon
- Livskvalitet / psykisk helse/stress
- Sikkerhet / skade / smerte ved behandling

Sekundære utfallsmål:
For barna:

- Dagliglivets aktiviteter, eksempelvis av- og påkledning, spising, personlig hygiene mm.
- Kommunikasjon / språk
- Atferd
- Sosial deltakelse / sosiale ferdigheter
- Skoleferdigheter

For familien:

- Familiens fungering
- Stress, belastning
- Foreldres psykiske helse og livskvalitet
- Livskvalitet for søsken
- Foreldres yrkesdeltakelse

Språk: Engelsk, skandinavisk

Litteratursøking

Vi utførte litteratursøk etter intervensjonene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden, samt Petø-metoden (sistnevnte vurderes og publiseres i en egen fullstendig metodevurdering), uten tidsavgrensning, i følgende databaser:

- CINAHL
- Cochrane library (Cochrane Central Register of Controlled Trials)
- Ovid-databaser
 - o AMED (Allied and Complementary Medicine)
 - o Embase
 - o Epub Ahead of Print, In-Process & Other Non-Indexed Citations, Ovid MEDLINE® Daily and Ovid MEDLINE®
 - o PsycINFO
- Epistemonikos
- PEDro
- SveMed

I tillegg gikk vi gjennom referanselister i relevante studier. Den eksterne faggruppen bidro også med litteratur på feltet.

Søkestrategier tilpasset hver av databasene ble utarbeidet i samarbeid med forskningsbibliotekar (EH). Søkestrategiene ble fagfellevurdert av en annen forskningsbibliotekar i Folkehelseinstituttet. Vi utførte også søk etter pågående studier i databasene *Clinical Trials* og *International Clinical Trials Registry Platform (ICTRP)*. Litteratursøkene ble utført i november 2016. Søkestrategien finnes i vedlegg 1.

Artikkelutvelging

Etter dublettsjekk og fjerning av dyrestudier, gikk to forskere gjennom trefflisten uavhengig av hverandre. Mulig relevante referanser ble bestilt inn i fulltekst. Studier som oppfylte inklusjonskriteriene ble inkludert i datagrunnlaget.

Vurdering av risiko for systematiske feil i enkeltstudier

Studiene ble vurdert ved hjelp av Risk of Bias-verktøyet (1). Dette er et sett av kriterier som vi bruker for å kritisk vurdere kjente kilder til systematiske skjevheter. Kriteriene inkluderer generering av randomiseringssekvens, skjult fordeling til grupper, blinding (av deltakere, personell og databehandlere), ufullstendige resultatdata, selektiv rapportering og andre kilder til systematiske skjevheter. Vurderingen ble gjort av to personer uavhengig av hverandre.

Dataekstraksjon

En medarbeider trakk ut relevante data fra studiene ved bruk av et datauttrekkskjema. Dataene ble sjekket av en annen medarbeider (LG). Det ble registrert førsteforfatter, publikasjonsår, land, studiedesign, studievarighet, antall deltakere, deltakernes alder, kjønn og diagnose, sammenlignende tiltak, utfall og resultater.

Analyser

Vi sammenstilte resultatene i tekst, og gjengav resultattabeller i vedlegg. Litteraturgrunnlaget var lite, og de inkluderte studiene benyttet ulike verktøy for vurdering av effekt. Mangel på beskrivelse av variasjon i utfallsdataene (standardavvik eller konfidensintervall) i to av studiene forhindret sammenslåing av data i meta-analyser.

Vurdering av kvaliteten på dokumentasjonen

Vi vurderte vår tillit til den samlede dokumentasjonen for de primære utfallsmålene ved hjelp av Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation (GRADE) (1). Vi brukte dataverktøyet Guideline Development Tool (GDT), <http://www.guidelinedevelopment.org/>. Metoden hjelper oss å vurdere hvilken tillit vi har til den samlede dokumentasjonen for hvert utfallsmål (Tabell 1). Metoden inkluderer vurdering av risiko for skjevhet («Risk of Bias»), samsvar (konsistens) i resultater mellom studier, sammenlignbarhet (direkthet; hvor like populasjonene, intervensjonene og utfallene i studiene er sammenliknet med de personer, tiltak og utfall man egentlig er opptatt av), hvor presise resultatestimater er, og om det er risiko for publiseringsskjevheter. GRADE kan også ta hensyn til om det er sterke sammenhenger mellom intervensjon og utfall, om det er stor/svært stor dose-responseeffekt, eller om konfunderende variabler ville ha redusert effekten.

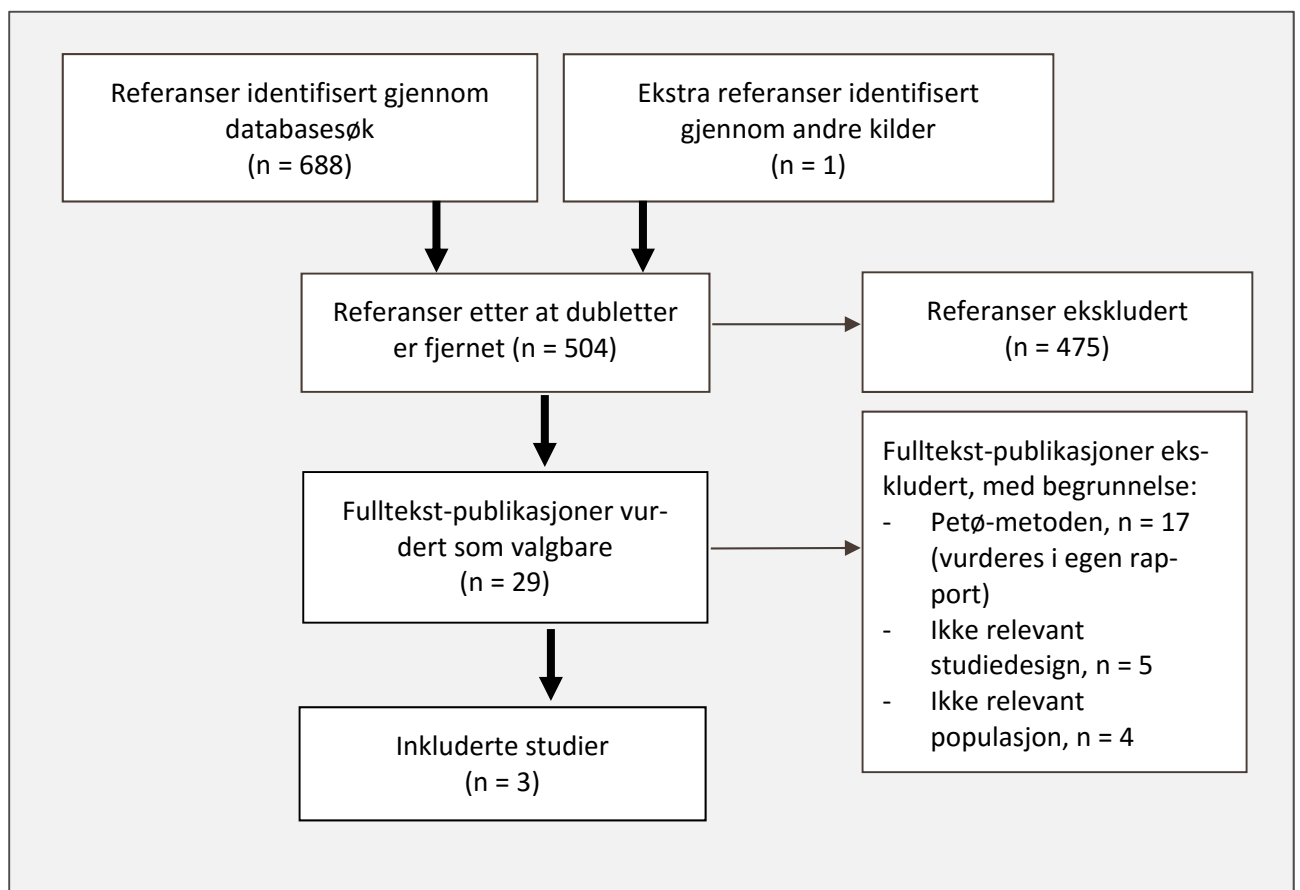
Tabell 1. GRADE-kategoriens betydning for påliteligheten av effektestimater

Kvalitetsvurdering	Betydning
Høy	Vi har stor tillit til at effektestimatet ligger nær den sanne effekten.
Middels	Vi har middels tillit til effektestimatet: det ligger sannsynligvis nær den sanne effekten, men det er også en mulighet for at den kan være forskjellig.
Lav	Vi har begrenset tillit til effektestimatet: den sanne effekten kan være vesentlig ulik effektestimatet.
Svært lav	Vi har svært liten tillit til at effektestimatet ligger nær den sanne effekten.

RESULTATER

Resultater av litteratursøket

Vi søkte etter litteratur frem til november 2016. Litteratursøket i databaser og ved manuell gjennomgang av utvalgte referanselister ga 504 referanser etter fjerning av dubletter (Figur 1). Vi leste titler og sammendrag, og ekskluderte ikke-relevante publikasjoner. Vi bestilte 29 mulig relevante publikasjoner i fulltekst.



Figur 1: Flytskjema – utvelgelse av studier

Beskrivelse av studiene

To personer leste uavhengig av hverandre gjennom studiene som ble bestilt inn i fulltekst. For hver studie ble det fylt ut et vurderingsskjema, med navn på førsteforfatter, publikasjonsår, populasjon, intervensjon, sammenligning og utfallsmål. Skjemaene ble sammenlignet, og vurdert i forhold til inklusjonskriteriene. Studier som oppfylte inklusjonskriteriene ble inkludert i metodevurderingen, mens de som ikke oppfylte inklusjonskriteriene ble ekskludert.

Ekskluderte studier

Vi fant fire studier som ikke inkluderte riktig populasjon og fem studier som ikke hadde riktig studiedesign i forhold til de oppsatte inklusjonskriteriene (vedlegg 2). Sytten publikasjoner omhandlet Petø-metoden. Petø-metoden skal vurderes og publiseres i en egen fullstendig metodevurdering.

Inkluderte studier

Vi inkluderte tre studier (tabell 2 og vedlegg 3) som totalt inkluderte 94 deltakere. Disse studiene omhandlet Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program. Vi fant ingen studier som oppfylte inklusjonskriteriene knyttet til de to andre intervensjonene (Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden). Vi identifiserte imidlertid én pågående randomisert, kontrollert studie om effekt av Kozijavkin-metoden (vedlegg 4).

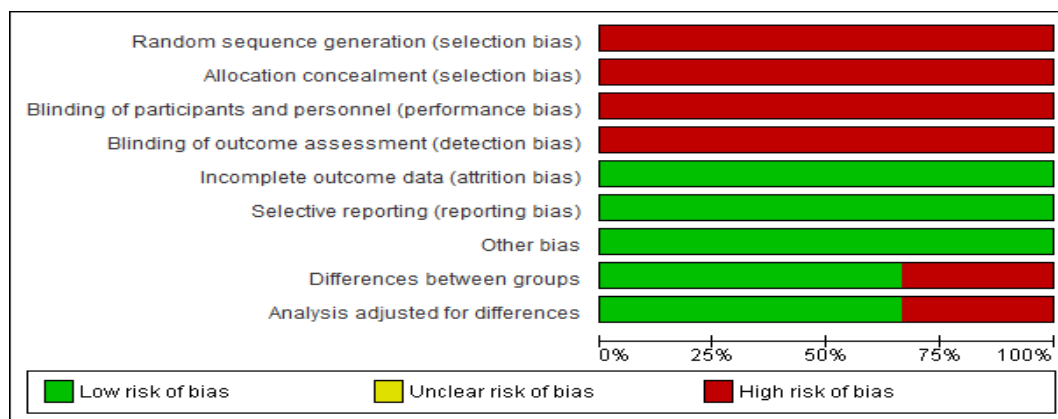
Tabell 2: Inkluderte studier

Studie (forfatter, årstall, land)	Populasjon	Intervensjon	Sammenligning	Utfall	Studiedesign	
Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program						
Bridgman 1985 New Zealand	12 barn med utviklingshemming*	IAHP program, trening ved IAHP klinikk, minimum 8 t/d, n=6	Standard behandling/undervisning, ca. 50-60% av tiden brukt i IAHP/d, n=6	- motoriske ferdigheter - kognisjon - språk - selvhjelp - sosialisering	Ikke-randomisert kontrollert studie, før- og etter- målinger	
von Tetzchner 2013 Norge/ Danmark	35 barn med utviklingshemming*	IAHP program og FHC, trening ved klinikker i USA	Standard behandling i Norge og Danmark	- motoriske ferdigheter - kognisjon og språk - atferd	Ikke-randomisert kontrollert studie, før- og etter- målinger	
		Tiltak 1	Tiltak 2	Kontroll		
Sparrow 1978 USA	45 barn med dyp psykisk utviklingshemming*	Modifisert IAHP program, 2 t x 5 d/u, n=15	Motivasjons program, 2 t x 5 d/u, n=15	Standard oppfølging, n=15	- IAHP profil - intelligens - motorisk utvikling - språkutvikling - atferd	Ikke-randomisert kontrollert studie med matchede kontroller, før- og etter-målinger

*=utviklingshemming som følge av medfødt eller ervervet hjerneskade

Risiko for skjevheter i inkluderte studier

Ingen av de tre inkluderte studiene var randomiserte kontrollerte studier, og studiene endte derfor opp med høy risiko for skjevheter i de to første spørsmålene i RoB-vurderingen. Ingen av studiene hadde mulighet til blinding av deltakere og personell, så også dette spørsmålet ble vurdert å gi høy risiko for skjevhet. I de tre inkluderte studiene var det ikke gjort forsøk på å blinde de som vurderte utfallsmålene, og dette resulterte i at vi vurderte dette til å kunne gi høy risiko for skjevhet. I noen tilfeller var det to personer som vurderte utfallene, og i andre tilfeller ble det gjort video-opptak av utfallsvurderingen for å kunne etterprøve resultatene. Dette øker objektiviteten av utfallsmålingen. Studien hadde ingen frafall eller likt antall ufullstendige datasett i gruppene, og ble således vurdert å ha lav risiko for frafallsskjevhet. Vi vurderte også at det var lav risiko for selektiv rapportering. Vi vurderte i tillegg om det var forskjell mellom gruppene i starten av studiene, og om det ble gjort forsøk på å justere for eventuelle skjevheter mellom gruppene. En av studiene hadde matchet deltakerne i intervensjonsgruppen og kontrollgruppen, i en studie ble det gjort forsøk på å matche deltakerne i intervensjonsgruppen med deltakere i kontrollgruppen, og i en studien hadde man ikke gjort forsøk på å matche deltakerne i intervensjons- og kontrollgruppen. To studier hadde like grupper ved start, og de ble derfor ikke gradert ned. En studie hadde ikke beskrevet om det var ulikheter mellom gruppene. De hadde heller ikke beskrevet om analysene var justerte for eventuelle ulikheter, og studien ble derfor gradert ned. Figurene under gir oversikt over risiko for skjevhet på tvers av studiene (figur 2).



Figur 2. Risiko for ulike skjevheter i inkluderte studier

Effekter av tiltak

Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program

Vi inkluderte tre studier (8-10) om effekt av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program. Én studie ble utført i New Zealand, én i USA og én i Norge og Danmark. Studien inkluderte fra 12 til 45 barn med utviklingshemming som følge av medfødt eller ervervet hjerneskade. En av studiene sam-

menlignet IAHP-program gjennomført i USA, med standard behandling av utviklingshemmede barn i New Zealand (8). En annen studie sammenlignet IAHP- og FHC-programmet, begge gjennomført i USA, med standard behandling for utviklingshemmede barn i Norge og i Danmark (10). Den siste studien sammenlignet et modifisert IAHP-program, med et motivasjonsprogram og standard behandling for institusjonsboende barn med dyp psykisk utviklingshemming (9).

Resultater i inkluderte studier om Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program

I studien av Bridgman og medarbeidere (8) ble en gruppe barn med utviklingshemming som deltok i Institutes for the Achievement of Human Potential program i USA, sammenlignet med en gruppe barn med utviklingshemming som forble i det normale utdanningsprogrammet sitt (gitt av N.Z. Society for the Intellectually Handicapped, for førskolebarn og the Special Class programmes gitt av the New Zealand Department of Education, for skolebarn). Studien inkluderte seks barn i hver gruppe. Antall deltakere var et resultat av hvor mange som skulle delta i IAHP-programmet da studien ble igangsatt. Det ble ikke gjort forsøk på matching av IAHP-deltakerne med kontrolldeltakerne. Forskerne hadde ingen innvirkning på eller kontroll over programmene som ble gitt. En godt trent observatør foretok alle utfallsmålingene i deltakernes egne hjem, med foreldrene tilstede. Tester ble gjennomført etter 0, 3, 6 og 10 måneder, og resultater som er relevante for denne metodevurderingen er presentert i tabell i vedlegg 5. Siden det var stor spredning i utviklingsalder, måtte flere testbatteri brukes (se vedlegg 3). Testenes benevnelse og skalaer er ikke oppgitt, men endring over tid ble målt som aldersutvikling i måneder. Studien var egentlig planlagt å gå over 12 måneder, men ble avsluttet etter 10 måneder. Dette fordi to deltakere trakk seg fra IAHP-programmet etter 10 måneder, mens de andre deltakerne hadde gjort store endringer i programmet for å gi innpass for elementer som ikke inngår i IAHP-programmet. Forskerne fant en forbigående forskjell i fremgang mellom de to gruppene i språk og selv-hjelp i favør av IAHP-programmet. Fremgangen fant hovedsakelig sted i løpet av de tre første månedene, for så å flate ut. Etter 10 måneder ble det ikke påvist forskjell i samlet gjennomsnittskår mellom gruppene.

I studien av Sparrow og medarbeidere (9) ble tre tiltak sammenlignet; et modifisert Institutes for the Achievement of Human Potential program, strukturert motivasjonsprogram og standard behandling ved institusjonen. Alle deltakerne hadde dyp psykisk utviklingshemming og bodde på institusjon. Studien inkluderte til sammen 45 deltakere, med 15 deltakere i hver gruppe. Hvert barn fikk behandling i ca. ett år. Det ble foretatt tester ved studiestart og i løpet av de to siste ukene før studieslutt av ansatte ved institusjonen. The Behavior Rating Inventory for the Retarded (BRIR) og en observasjons-skjema ble utviklet spesielt for denne studien, i tillegg ble Stanford Binet test brukt for måling av IQ (se vedlegg 3 for andre tester som ble brukt). Testenes benevnelse og skalaer er ikke oppgitt. Studien hadde 22 predefinerte utfallsmål, og resultater for de utfallsmålene som er relevante for denne metodevurderingen er presentert i tabell i vedlegg 5. Det ble foretatt mange statistiske tester for å avdekke om det kunne finnes forskjeller i noen av utfallsmålene mellom gruppene, både egnede og mindre egnede statistiske tester. I en av analysene fant de at gruppen i det modifiserte IAHP-programmet skåret lavere enn de andre gruppene (på «time not attending»). Forskerne fant

ingen forskjell mellom gruppene i noen av de andre utfallsmålene, inkludert de som er relevante for denne metodevurderingen. Når det gjøres mange statistiske tester, vil én av 20 tester rent tilfeldig kunne være statistisk signifikant. Til tross for det store antall tester i denne studien, var det bare ett statistisk signifikant funn. Det er derfor ikke sikkert at den signifikante verdien gjenspeiler en reell forskjell mellom gruppene.

I studien av von Tetzchner og medarbeidere (10) ble en gruppe barn med utviklingshemming som deltok på Institutes for the Achievement of Human Potential program eller Family Hope Center program, sammenlignet med en gruppe barn med utviklingshemming som deltok i det ordinære habilitetstilbudet i Norge og Danmark. Det ble i utgangspunktet rekruttert 30 barn til IAHP/FHC-gruppen, men én deltaker døde og én deltaker ble ekskludert grunnet en progredierende tilstand. Ytterligere 10 deltakere trakk seg før eller underveis i studien. Ingen i kontrollgruppen trakk seg. Det deltok 18 barn i IAHP/FHC-gruppen og 17 barn i kontrollgruppen. Studien gikk over to år og data ble innhentet ved 0, 12 og 24 måneder. I tilfeller der det gikk litt kortere eller litt lengre tid mellom målingene, ble dataene tidsjustert i forhold til aldersutvikling. Ulike instrumenter ble brukt for å undersøke motoriske ferdigheter, kognisjon og språk, samt atferd (se vedlegg 3). Benevnelser eller skalaer for de ulike testene er ikke oppgitt. Undersøkelsene av barna ble gjennomført med to fagpersoner tilstede, og resultater som er relevante for denne metodevurderingen er presentert i tabell i vedlegg 5. Undersøkelsene ble filmet hvis foreldrene tillot dette. Filmene ble konsultert hvis det var usikkerhet knyttet til resultatene. Forskerne fant ingen forskjeller mellom gruppene i noen av testene ved starten av studien. Ved oppfølging (12 og 24 måneder) fant forskerne ingen forskjell mellom gruppene i grovmotoriske ferdigheter. IAHP/FHC-gruppen skåret høyere på finmotorisk ferdighet etter 12 måneder sammenlignet med kontrollgruppen, men de fant ingen forskjell i finmotoriske ferdigheter mellom gruppene etter 24 måneder. Begge gruppene viste positive endringer i atferd i løpet av studieperioden. Forskerne fant større endringsskår hos kontrollgruppen etter 12 måneder, men forskerne fant ingen forskjell mellom gruppene i atferd etter 24 måneder. Datagrunnlaget viste store individuelle forskjeller, og det er usikkert om forutsetningene for å bruke de statistiske metodene holder.

Foreldrene til barna med hjerneskade ble også intervjuet i denne studien. Ved studiesstart vurderte foreldrene i IAHP/FHC-gruppen sine barns ferdigheter som dårligere enn foreldrene i kontrollgruppen vurderte sine barns ferdigheter. Likeledes vurderte foreldrene i IAHP/FHC-gruppen sine barns fremgang som større enn foreldrene i kontrollgruppen vurderte sine barns fremgang ved studieslutt. Dette til tross for at forskerne ikke fant forskjeller mellom barna i de to gruppene, hverken ved oppstart eller ved studieslutt.

Gradering av resultatene

Vi vurderte vår tillit til resultatene (våre oppsatte primære utfallsmål) for Institutes for the Achievement of Human Potential program/Family Hope Center program sammenlignet med standard behandling ved hjelp av GRADE-verktøyet (tabell 3). Av de fem predefinerte primære utfallsmålene, fant vi data for tre utfallsmål i de inkluderte studiene. Både måleinstrument, vurderingsskalaer og tidspunkt for vurdering var ulike i stu-

diene. Siden to av studiene ikke hadde presentert konfidensintervall eller standardavvik, kunne vi ikke regne ut standardiserte gjennomsnittsforskjeller (SMD) som vanligvis kan brukes for å vurdere effekt på tvers av studier i tilfeller der ulike verktøy og skalaer benyttes. Her kunne vi altså ikke slå resultatene sammen, og dermed heller ikke beregne effekt på tvers av studiene.

Tabell 3. Vurdering av tillit til resultatene av Institutes for the Achievement of Human Potential program / Family Hope Center program

Outcomes	Absolute effects (95% CI)		Ne of participants (studies)	Quality of the evidence (GRADE)	Comments
Grovmotorisk ferdighet	Ikke mulig å vurdere forskjell i effekt mellom intervensjoner og kontrolltiltak på tvers av studiene pga manglende angivelse av usikkerhet i tallmaterialet i to av studiene. Det er ingenting i tallmaterialet som kan støtte en hypotese om at intervensjonene har bedre effekt enn kontrolltiltakene.		77* (3 CCT)	⊕○○○ VERY LOW	Studiedesign, få deltakere og mangel på angivelse av usikkerhet i tallmaterialet i to av studiene bidrar til at vi vurderer kvaliteten på kunnskapsgrunnlaget som svært lav.
Håndfunksjon / finmotorisk ferdighet (målt som endringsskår fra baseline)	Endringsskår Kontroll 12 mnd: 7,3 (9,8) [§] 24 mnd: 0,8 (11,3)	Endringsskår IAHP/FHC 12 mnd: -1,2 (5,5) 24 mnd: 0,7 (9,4)	35 (1 CCT)	⊕○○○ VERY LOW	Studiedesign og få deltakere bidrar til at vi vurderer kvaliteten på kunnskapsgrunnlaget som svært lav.
Kognitiv funksjon	Ikke mulig å vurdere forskjell i effekt mellom intervensjoner og kontrolltiltak på tvers av studiene pga manglende angivelse av usikkerhet i tallmaterialet i to av studiene. Det er ingenting i tallmaterialet som kan støtte en hypotese om at intervensjonene har bedre effekt enn kontrolltiltakene.		77* (3 CCT)	⊕○○○ VERY LOW	Studiedesign, få deltakere og mangel på angivelse av usikkerhet i tallmaterialet i to av studiene bidrar til at vi vurderer kvaliteten på kunnskapsgrunnlaget som svært lav.
Livskvalitet	Ingen utfallsdata		0 (0)	-	Ingen studier
Sikkerhet / skade	Ingen utfallsdata		0 (0)	-	Ingen studier

CI: Confidence interval, * = fra studien av Sparrow og medarbeidere er kun deltakere i gruppen med modifisert IAHP-program og kontrollgruppen tatt med i beregningen av antall deltakere i studiene, CCT = kontrollert klinisk studie (controlled clinical trial), her brukt om kontrollert ikke-randomisert studie med før- og etter-målinger, § = statistisk signifikant forskjell i effekt mellom tiltak og kontroll

GRADE Working Group grades of evidence

High quality: We are very confident that the true effect lies close to that of the estimate of the effect

Moderate quality: We are moderately confident in the effect estimate: The true effect is likely to be close to the estimate of the effect, but there is a possibility that it is substantially different

Low quality: Our confidence in the effect estimate is limited: The true effect may be substantially different from the estimate of the effect

Very low quality: We have very little confidence in the effect estimate: The true effect is likely to be substantially different from the estimate of effect

Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation

Vi fant ingen studier om effekt av Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation som oppfylte inklusjonskriteriene. Vi vet derfor ikke noe om effekten av denne intervensjonen.

Kozijavkin-metoden

Vi fant ingen studier om effekt av Kozijavkin-metoden som oppfylte inklusjonskriteriene. Vi vet derfor ikke noe om effekten av denne intervensjonen.

OPPSUMMERING

Vi inkluderte tre studier om effekten av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program sammenlignet med standard behandling/habilitering. Studiene fant ingen forskjell i effekt på grovmotorisk, finmotorisk og kognitiv funksjon mellom tiltak og kontroll ved studienes slutt. Kvaliteten på kunnskapsgrunnlaget var imidlertid svært lav vurdert med GRADE. Studiene fant heller ingen forskjell i effekt over tid mellom Institutes for the Achievement of Human Potential program/Family Hope Center program og standard behandling i dagliglivsaktiviteter, kommunikasjon/språk, atferd og sosial deltakelse. Ingen av studiene om Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program undersøkte sikkerhet eller familierelaterte utfallsmål, og vi kan derfor ikke trekke konklusjoner om disse utfallsmålene. Vi fant ingen kontrollerte studier om Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden og kan derfor ikke trekke konklusjoner om effekt og sikkerhet av disse tiltakene.

Helseøkonomisk evaluering

En helseøkonomisk evaluering kan defineres som en sammenlignende analyse av alternative handlingsmåter, både når det gjelder kostnader og konsekvenser/effekt (38). Kostnadene representerer ressursbruk, mens konsekvensene representerer alle andre effekter av et helsetiltak enn ressursbruk og fokuserer generelt på individets helsetilstand. Et sentralt spørsmål i mange prioriteringsbeslutninger er om effekt av tiltaket står i et rimelig forhold til ressursbruk. En fullstendig økonomisk evaluering er et verktøy som kan gi en indikasjon på dette forholdet, forutsatt at det foreligger dokumentasjon på relativ effekt.

METODE

Gjennomgangen av tilgjengelig dokumentasjon viste manglende dokumentasjon om effekt av de vurderte habiliteringsprogrammene, og det var derfor ikke hensiktsmessig å utføre en fullstendig økonomisk evaluering i dette prosjektet. Vi har derfor valgt å gjøre en beskrivelse av kostnader knyttet til de utenlandske habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Family Hope Center program, Institutes for the Achievement of Human Potential program, og Kozijavkin-metoden. Fravær av faglige retningslinjer førte til at det var utfordrende å definere spesifikk(e) komparator(er) til evalueringen, men som eksempel på komparator har vi valgt å gjøre en kostnadsbeskrivelse av to programmer som utføres i Helse Sør-Øst for denne gruppen pasienter: Program Intensivert Habilitering (PIH) ved Sørlandet sykehus og Program Intensiv Trening/Habilitering (PITH) ved Oslo universitetssykehus. Kostnadsbeskrivelser er uttrykt i norske kroner (NOK), og vi har valgt å presentere et estimat for gjennomsnittskostnad per deltaker med familie. Vi har beskrevet kostnader ut i fra et helsetjenesteperspektiv, med en tidshorisont på 1 år. Et helsetjenesteperspektiv inkluderer kostnader som berører helsetjenesten i Norge. Vi har inkludert reise- og oppholdskostnader da dette blir refundert av Helfo for utenlandsprogrammene, og av pasientreiser for programmene i Norge. Ved Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering er ikke oppholdskostnader inkludert. Helfo er Helsedirektoratets ytre etat, og det er de regionale helseforetakene (RHFene) som har ansvaret for og finansierer pasientreiser gjennom lokalt helseforetak (39, 40). I henhold til helsetjenesteperspektivet er ikke kostnader av redusert deltakelse i arbeidslivet (eller fritid) inkludert (38). For å oppnå en mest mulig realistisk beskrivelse av kostnader for habiliteringsprogrammene har vi tatt utgangspunkt i reelle prosesser ved metodene. Dette innebærer en detaljert beskrivelse av metodene, og søk etter kostnader for hver enkelt kostnadskomponent.

Kostnader ved utenlandske habiliteringsprogram

De totale kostnadene forbundet med utenlandske habiliteringsprogram består av kostnader knyttet til program, reise og opphold finansiert av Helfo, samt kostnader knyttet til trening og utstyr i hjemmet finansiert av de regionale helseforetakene. All data er hentet fra 2015. Det er variasjon i antall besøk per år og varighet ved de ulike programmene, og vi fikk et anslag på 1-2 ganger i året, avhengig av program og individnivå. Varigheten er ca. 5 dager per tur (41, 42).

Program-, reise- og oppholdskostnader

Vi fikk oversendt data fra Helsedirektoratet vedrørende program-, reise-, og oppholdskostnader som ble utbetalt fra Helfo i 2015. Helsedirektoratet hadde mottatt dataene fra Helfo (43). Kostnader fordelt mellom de ulike regionale helseforetakene var ikke tilgjengelig. Helfo kan yte bidrag til nødvendige reise- og oppholdskostnader (inkludert eventuell deltakeravgift) i forbindelse med behandling og trening etter de fire metodene, for deltaker med foreldre. Avhengig av program og tilbud kan det i enkelte tilfeller ytes bidrag til søsken. Andre ledsagere enn foreldre kan gis bidrag ved behov. Utgifter til kost dekkes etter kvittering, eller godtgjørelse etter sats. For at det skal ytes bidrag må det i søknad foreligge bekreftelse fra barnets lege om at programmet anses som faglig forsvarlig, samt foreligge uttalelse fra det regionale helseforetaket om at eksisterende habiliteringstilbud er mangelfullt i Norge (29). Behandlings- og treningsopplegget kan strekke seg over flere år, og dermed kan det ytes bidrag til flere opphold. Vilkår for bidrag samt retningslinjer for refusjon av utgifter er felles for de fire metodene (29).

Trening og utstyr til hjemmet

De regionale helseforetakene gir to typer stønader, stønad til lønn for å ansette treningsassistenter i hjemmet og stønad til utstyr og rekvisita. Vi innhentet kostnader forbundet med trening og utstyr i hjemmet for 2015 fra de fire regionale helseforetakene i Norge. Disse kostnadene ytes uavhengig av metode, og hvor mange metoder man trener etter (44, 45). Vi presenterer derfor kostnader samlet for alle metodene.

Kostnader ved Program Intensiv Habilitering og Program Intensiv Habilitering/Trening

Vi har delt kostnader forbundet med Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering i to grupper, kostnader knyttet til drift av programmet, og kostnader knyttet til reise og opphold. All data er hentet fra 2015. Det er variasjon i antall besøk per år og varighet ved programmene, vi har gjort et anslag på 7 uker, fordelt på 3 ulike opphold (46, 47).

Programkostnader

Programkostnader omfatter kostnader knyttet til drift, som faste stillinger inkludert sosiale kostnader, opplæringskostnader, materialforbruk, og andre driftskostnader. Vi

delte driftskostnadene på antall deltakere for å komme frem til en gjennomsnittskostnad per deltaker med familie. Data for tilbudene Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering ble hentet ut fra enhetsleder ved Program Intensivert Habilitering (Sørlandet sykehus) og daglig leder ved Program Intensiv Trening/Habilitering (Oslo Universitetssykehus), samt årsrapport til Program Intensivert Habilitering for 2015 og årsmelding til Program Intensiv Trening/Habilitering for 2015 (47-50). Vi fikk oppgitt kostnader for Program Intensivert Habilitering, og budsjett for Program Intensiv Trening/Habilitering i 2015, hvor innholdet er beskrevet noe ulikt. Vi antok at kostnadene dekket det samme, da mye samsvarer mellom programmene og kostnadene totalt er relativt like. Antall normerte årsverk utgjorde til sammen 12,5 fordelt på enhetsleder, spesialpedagog, spesialfysioterapeut, spesialergoterapeut, sekretær, miljøarbeider, psykologspesialist, og vernepleier ved Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering (49, 50).

Reisekostnader

«Pasientreiser» finansierer reisekostnader for deltaker og en nærperson. Når det gjelder disse kostnadene tilknyttet Program Intensivert Habilitering (Sørlandet sykehus) og Program Intensiv Trening/Habilitering (Oslo universitetssykehus) var ikke dette mulig å innhente fra pasientreiser, da kostnadene kun er registrert opp mot behandlingssted og ikke avdeling og type behandling. Derfor antok vi at disse kostnadene samsvarer med reisekostnader per deltaker tilknyttet Petø-tilbudet i Helse Sør-Øst. Disse kostnadstallene ble hentet fra pasientreiser kontoret i Helse Sør-Øst. Vi har ingen oversikt over hvor stor andel deltakere som benytter seg av pasientreiser, kun antall saker. Gjestedeltakere fra andre regionale helseforetak finansieres av pasientreiser i den helseregionen man tilhører, og vi har ikke tatt høyde for dette i vår rapport (51). Reisekostnader fra pasientreiser i 2015 inkluderte reiser fra 2014 hvor vedtak var fattet i 2015 (tilsvarende vil det også være ved senere år) (52).

Deltakere ved habiliteringsprogrammene

Antall deltakere ved de aktuelle habiliteringsprogrammene ble innhentet for å kunne beregne et anslag på gjennomsnittskostnad brukt per deltaker med familie, og er presentert i tabell 4. Dataen ble hentet inn fra Helsedirektoratet, de regionale helseforetakene, Sørlandet sykehus og Oslo Universitetssykehus. I følge Helsedirektoratet deltok 86 unike individer på utenlandsprogrammene i 2015, hvorav hovedgruppen deltok på Family Hope Center program (43). Vi mottok data fra 2011-2015, og antall deltakere ser ut til å ha vært ganske stabilt i disse årene. I følge de regionale helseforetakene søkte 68 deltakere om støtte til trening og utstyr i hjemmet (42, 44, 45, 53). Vi har derfor brukt 68 deltakere i beregning av gjennomsnittskostnad per deltaker til trening og utstyr i hjemmet. Flere deltakere trener etter flere metoder, ofte Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation kombinert med Family Hope Center program (44, 45, 53). I 2015 hadde Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering 43 deltakere. Begge programmene tar imot gjestepasienter fra andre regionale helseforetak (49, 50). De ulike programmene skiller seg noe fra hverandre med hensyn til alder. Ved utenlandsprogrammene kan det ytes bidrag til personer i alle aldre. For personer over 18 år kan det gis bidrag etter en skjønnsmessig vurdering. Noen individer over 18

år er inkludert i våre beregninger, da vi ikke fikk informasjon kun om aldersgruppen under 18 år (41, 43, 54). Program Intensivert Habilitering tar imot barn fra 2-5 år, og Program Intensiv Trening/Habilitering tar imot barn fra 0-6 år (49, 50).

Tabell 4. Antall unike deltakere ved de ulike habiliteringsprogrammene i 2015

Program	Hele Norge	Kilde
Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation	20	Helsedirektoratet/Helfo
Family Hope Center program	55	Helsedirektoratet/Helfo
Institutes for the Achievement of Human Potential program	8	Helsedirektoratet/Helfo
Kozijavkin-metoden	3	Helsedirektoratet/Helfo
Utenlandsprogram totalt	86	Helsedirektoratet/Helfo
PIH og PITH	43	PIH årsrapport 2015, PITH årsmelding 2015

*2 i Helse Sør-Øst og 2 i Helse Midt trener både etter ABR og FHC. Flere i Helse Vest trener etter flere metoder, i hovedsak kombinasjonen ABR og FHC (44, 45, 53).

RESULTATER

Totalkostnader og gjennomsnittskostnader

I tabell 5 presenteres totalkostnader og gjennomsnittskostnader for de utenlandske habiliteringsprogrammene og komparatorene Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering. Gjennomsnittskostnad per deltaker utgjorde 426 146 kroner for utenlandsprogrammene og gjennomsnittskostnad per deltaker er estimert til 225 005 kroner for Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering.

Tabell 5. Kostnader og gjennomsnittskostnad per deltaker

Finansieringskilde	Utenlandsprogram (NOK)	Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering (NOK)
Regionale helseforetak	18 027 207	9 675 202
Gjennomsnittlig utbetaling per deltaker	265 106	225 005
Helfo	13 849 462	-
Gjennomsnittlig utbetaling per deltaker	161 040	-
Totalt	31 876 669	9 675 202
Gjennomsnittlig utbetaling per deltaker	426 146	225 005

Kostnader knyttet til utenlandsprogrammene

I denne delen av rapporten presenterer vi kostnader knyttet til de intensive habiliteringsprogrammene i utlandet, Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden.

Program-, reise- og oppholdskostnader

Kostnader mottatt fra Helsedirektoratet (data fra Helfo) for 2015 presenteres i tabell 6. Program-, reise-, og oppholdskostnader per deltaker med familie utgjorde 161 040 kroner (13 849 462 kroner/86 deltakere). Kostnadene per deltaker med familie for Family Hope Center program var betydelig høyere enn ved de andre metodene.

Tabell 6. Helfo utbetalinger til program, reise, og opphold for hele Norge i 2015

Program	Helfo utbetalinger (NOK)	Gjennomsnittskostnad per deltaker (NOK)	Kilde
Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation	1 318 771	65 939	Helsedirektoratet/ Helfo
Family Hope Center program	11 323 257	205 877	Helsedirektoratet/ Helfo
Institutes for the Achievement of Human Potential program	1 012 186	126 523	Helsedirektoratet/ Helfo
Kozijavkin-metoden	195 248	65 083	Helsedirektoratet/ Helfo
Totalt	13 849 462	161 040	-

Trening og utstyr til hjemmet

Kostnadene mottatt fra de regionale helseforetakene (RHFene) knyttet til trening og utstyr i hjemmet for 2015 er presentert i tabell 7. Totalt for hele Norge utgjorde kostnadene til trening og utstyr i hjemmet 18 027 207 kroner, hvor den største kostnadsdriveren er ansatt hjelp til trening. Den gjennomsnittlige kostnaden per deltaker med familie var 265 106 kroner (18 027 207 kroner/68 deltakere). En familie kan maksimalt søke om 300 000 kroner til ansatt hjelp og 24 000 kroner til utstyr per år (42, 53).

Tabell 7. Regionale helseforetakene sine utbetalinger til trening og utstyr i hjemmet for 2015

RHF	Ansatt hjelp til trening (NOK)	Utstyr (NOK)	Ansatt hjelp til trening og utstyr (NOK)	Gjennomsnittskostnad per deltaker (NOK)	Kilde
Helse Midt	2 467 500	207 000	2 674 500	-	Helse Midt RHF
Helse Nord	2 378 203	190 358	2 568 561	-	Helse Nord RHF
Helse Sør-Øst	-	-	10 536 671	-	Helse Sør-Øst RHF
Helse Vest	2 076 239	171 236	2 247 475	-	Helse Vest RHF
Totalt	-	-	18 027 207	265 106	-

Total kostnad og gjennomsnittskostnad per deltaker

Med en total kostnad pålydende 31 876 669 kroner (13 849 462 kroner + 18 027 207 kroner) for utenlandsprogrammene i 2015, ga dette en gjennomsnittskostnad på 426 146 kroner (265 106 kroner + 161 040 kroner) per deltaker med familie (tabell 8). Kostnad for trening og utstyr i hjemmet var høyere enn kostnad for program, reise og opphold.

Tabell 8. Total kostnad og gjennomsnittskostnad per deltaker med familie i 2015

Kostnad	Norske kroner (NOK)
Totalt	31 876 669
Gjennomsnitt per deltaker	426 146

Kostnader knyttet til Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering

I denne delen av rapporten presenterer vi kostnader knyttet til Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering.

Programkostnader

Vi har estimert at Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering hadde en årlig kostnad på til sammen 9 579 398 kroner i 2015. Gjennomsnittskostnad per deltaker med familie ble dermed 222 777 kroner (9 579 398 kroner/43 deltakere). Dette inkluderer kostnader knyttet til drift, som faste stillinger inkludert sosiale kostnader, opplæringskostnader, materialforbruk, og andre driftskostnader.

Reisekostnader

Totalt kostnader i 2015 for reise forbundet med Petø-metoden i Helse Sør-Øst er estimert til 238 427 kroner for aldersgruppen 0-18 år (51), tabell 9. Dermed har vi anslått en gjennomsnittskostnad per deltaker på 2 228 kroner (238 427 kroner/107 deltakere

ved Petø-metoden i Helse Sør-Øst) for Helse Sør-Øst i 2015. Totale reisekostnader ble da 95 804 (2 228*43) kroner for Program Intensivert Rehabilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering.

Tabell 9. Reisekostnader i Helse Sør-Øst

RHF	Kostnad (NOK)	Kilde
Reise Petø-tilbudet totalt	238 427	Pasientreiser Helse Sør-Øst
Per deltaker*	2 228	-
Reise Program Intensivert Rehabilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering totalt	95 804	-

*Antall deltakere 0-18 år ved Petø-tilbudet i Helse Sør-Øst i 2015 var 107.

Total kostnad og gjennomsnittskostnad per deltaker

Med 43 unike deltakere ved Program Intensivert Rehabilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering i 2015, og en total kostnad pålydende 9 675 202 kroner ga dette en gjennomsnittskostnad på 225 005 kroner per deltaker med familie (tabell 10).

Tabell 10. Kostnader og gjennomsnittskostnad per deltaker for Program Intensivert Rehabilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering

Habiliterings-program	Programkostnad (NOK)	Reisekostnad (NOK)	Kostnader totalt (NOK)	Kilder
PIH og PITH	9 579 398	95 804	9 675 202	Enhetsleder PIH, daglig leder PITH, antakelse
Habiliterings-program	Gjennomsnittskostnad program per deltaker (NOK)	Gjennomsnittskostnad reise per deltaker (NOK)	Kostnader totalt per deltaker (NOK)	
PIH og PITH	222 777	2 228	225 005	-

OPPSUMMERING

Vi har beskrevet kostnader forbundet med de utenlandske habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden, samt de regionale habiliteringsprogrammene Program Intensivert Rehabilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering. Kostnadene knyttet til utenlandsprogrammene utgjorde i 2015 til sammen 31 876 669 kroner. Gjennomsnittskostnaden per deltaker med familie var 426 146 kroner. De to norske programmene Program Intensivert Rehabilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering hadde i 2015 en beregnet total kostnad på 9 675 202 kroner, og en gjennomsnittskostnad per deltaker med familie på 225 005 kroner.

Etisk vurdering

Bruk av de fire utenlandske intensive rehabiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program, Kozijavkin-metoden reiser flere moralske spørsmål knyttet til pasienten, dennes familie, helsetjenesten, tilbyderne av tiltakene og samfunnet. Vi har ikke gjennomført en fullstendig etisk analyse. Vårt mål har vært å belyse, men ikke nødvendigvis besvare spørsmålene som reises.

METODE

For å belyse og vurdere etiske og moralske spørsmål benyttet vi en metode som er utviklet av Kunnskapssenteret (1). Metoden består av seks trinn, der man:

1. Identifiser hensikten med tiltaket og beskriver målsettingen med metodevurderingen.
2. Identifiser berørte parter og interessenter.
3. Identifiser relevante moralske spørsmål ut fra en sjekkliste (55) og grunnvalgene.
4. Samler informasjon for å besvare spørsmålene som er valgt ut i punkt 3 ved hjelp av egnede metoder (litteratursøk, høringer, brukermedvirkning).
5. Ordner kunnskapen i egnede tema og analyser disse.
6. Oppsummerer og sammenfatter prosessen.

Hensikten med tiltakene og målsettingen med metodevurderingen

Denne metodevurderingen omhandler tiltakene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden. Tiltakenes tilbys barn og unge med hjerneskade, og programmene har ulike tilnærminger og mål for pasientene (6, 11, 12, 32). Målsettinger og metoder er beskrevet i innledningskapittelet i denne metodevurderingen.

Alle metoder som brukes i helsetjenesten bør være basert på forskning som dokumenterer klinisk effekt. Målsettingen med denne metodevurderingen har vært å sammenstille og vurdere klinisk effekt og sikkerhet, samt å gi en helseøkonomisk evaluering av metodene. Rapporten er ment å hjelpe beslutningstakerne i Nye metoder til å fatte velinformerte beslutninger som kan forbedre kvaliteten i helsetjenestene.

Berørte parter og interessenter

Vi identifiserte flere berørte parter ved tiltakene i denne metodevurderingen. Disse inkluderer pasienten, pasientens familie og søsken, barnehage, skole, ulike nivå av helsetjenesten og samfunnet. Pasienten og familien er direkte berørt gjennom deltakelse i programmene. Barnehage, skole og helsetjenesten blir indirekte berørt ved at de i stor grad må forholde seg til, og eventuelt bidra i treningen til pasienten. Samfunnet er berørt gjennom lover og forskrifter (2, 14), og gjennom prioritering av økonomiske ressurser. Institusjonene som tilbyr programmene kan defineres både som berørte parter og interessenter. Dette fordi de tilbyr programmene (berørte parter), og fordi de tilbyr et produkt som blir finansiert av brukerne/helsetjenesten (interessenter).

Identifisering av relevante moralske spørsmål

Vi identifiserte noen relevante moralske spørsmål og knyttet disse til de berørte partene og interessentenes perspektiver (vedlegg 7). For å identifisere relevante spørsmål brukte vi sjekkliste for etisk vurdering som er utarbeidet av Kunnskapssenteret i Folkehelseinstituttet (vedlegg 8, (55)). Vi drøftet i tillegg moralske spørsmål med den eksterne faggruppen som besto av fagpersoner oppnevnt av de regionale helseforetakene, Helsedirektoratet og Høgskolen i Oslo og Akershus, samt brukere (se «Forord»).

Innhenting av informasjon for å besvare spørsmålene

For å belyse temaet brukte vi publisert litteratur som vi fant gjennom vårt litteratursøk (se kapittel «Litteratursøking»), informasjon som ble hentet inn fra de inkluderte utenlandsprogrammernes nettsider og drøfting med den eksterne faggruppen.

RESULTAT

Barnets perspektiv

Foreldre har rett til å ta beslutninger på barns vegne, og barnets beste skal være et grunnleggende hensyn. Barn har også rett til å bli hørt, og å få tilrettelagt informasjon (15, 56). De fleste barna som deltar i utenlandsprogrammene kan i liten grad selv påvirke om de vil delta eller ikke, både fordi noen er svært unge ved oppstart, og fordi diagnosen i seg selv kan gjøre det utfordrende å ta imot tilpasset informasjon og gi uttrykk for om de vil delta i programmene (16). Den daglige treningen er ofte omfattende og krevende for barnet (16). Det er uklart om det er rom for å avslutte treningsøkten dersom pasienten prøver å uttrykke motvilje, gjennom for eksempel gråt. Ved gjennomføring av Institutes for the Achievement of Human Potential program er pasientens muligheter for vanlig sosial samhandling og livsutfoldelse redusert (16). Dette henger muligens sammen med at programmet ble utviklet i en periode der det ikke var vanlig at

barn med store funksjonsnedsettelse og utviklingshemming ble integrert i samfunnet (57). Ut i fra internasjonale konvensjoner har barn med funksjonsnedsettelse nå rett til likeverdig deltakelse i samfunnet, muligheter til sosial integrering og personlig utvikling (15, 56).

Foreldreperspektivet

En del foreldre opplever at tilbudet om intensiv habilitering i regi av spesialisthelsetjenesten og kommunen ikke er tilfredsstillende (58). Alle foreldre ønsker det beste for sine barn og det er naturlig at de som ikke er fornøyde med det tilbudet de får, vil søke etter andre og gjerne alternative, utenlandske behandlingstilbud (8). Mange har også et sterkt ønske om å selv kunne ta aktivt del i barnets behandling (8). Foreldre som benytter utenlandske habiliteringsprogram opplever å bli godt ivaretatt av personalet ved disse programmene (58). De kan også føle at det blir fokusert mer på hva barna kan oppnå, i motsetning til tidligere opplevelser med fokus på barnets begrensninger (10).

Utenlandske intensive habiliteringsprogram

De utenlandske habiliteringsprogrammene lover mye. Ved Institutes for the Achievement of Human Potential loves det at instituttet skal *"[...] take brain-injured children, however severely hurt, and help them to achieve normality physically, intellectually, physiologically, and socially"* (32). Ved Family Hope Center lover man foreldrene at *"[...] understanding child brain development can help your child overcome symptoms of autism, ADD/ADHD, cerebral palsy, Down syndrome, seizures, dyslexia, and more"* (11). Det er berettiget å stille spørsmål om disse programmene gir den lovede effekten. Eller i det minste om de har bedre effekt, samme effekt eller mindre effekt enn andre metoder som krever færre nedlagte treningstimer. Vi har i denne metodevurderingen ikke funnet dokumentasjon for at programmene i regi av Institutes for the Achievement of Human Potential og Family Hope Center gir bedre effekt enn annen, mindre intensiv habilitering. Det er videre usikkert om bruk av disse programmene sikrer pasientene det beste habiliteringstilbudet, da både Institutes for the Achievement of Human Potential og Family Hope Center bygger på teorier og praksis som ikke støttes av nåværende kunnskapsgrunnlag (57, 59).

Vi fant ingen kontrollerte studier om effekten av habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden, og vi kan dermed ikke trekke konklusjoner om effekten av disse programmene. Programmene lover imidlertid en god del. Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation-programmets mål er *"[...] to show that irreversibility of initial structural brain damage does not make motor function recovery intrinsically hopeless"* (60). Kozijavkin-metoden presenterer målsetningen slik: *"Different rehabilitation modalities of this system complement and intensify each other, and are aimed at the main task of rehabilitation: improvement in the quality of the patient's life"* (12). Påstandene bør dokumenteres gjennom vitenskapelige anerkjente metoder. Det er positivt at det er igangsatt en studie for å undersøke effekten av Kozijavkin-metoden (informasjon i vedlegg 5 om pågående studier).

Helsetjenesteperspektiv og kostnader

I 2015 reiste 86 barn og deres familier til utlandet for å delta i habiliteringsprogrammer (tall fra Helfo). I tillegg til reise og opphold ved institusjonene, kreves det en betydelig egeninnsats i form av hjemmetrening i periodene mellom oppholdene (6, 11, 12, 32). Programmene griper derfor dypt inn i pasientens og familienes hverdagsliv. I tillegg kreves det mye av hjelpeapparatet rundt pasienten. Det kan være utfordringer knyttet til å integrere utenlandske tilbud med øvrig behandling og oppfølging som mål og tiltak initiert fra kommunens- og spesialisthelsetjenestens fagfolk (Samhandlingsreform, koordinerende instans, individuell plan). Det kan stilles spørsmål om hvem som skal bistå barn og foreldre med veiledning, tilrettelegging og trening, og legge til rette for at dette kan foregå på vanlige arenaer som barnehage og skole. Videre er det usikkert om foreldre kan kreve at fagfolk skal følge opp tiltak de ikke kan være faglige ansvarlige for.

Reise og opphold ved de utenlandske institusjonene finansieres etter folketrygdlovens § 5-22 (bidragsordningen), og utgjorde totalt 13 849 462 kroner for 2015. Trening og utstyr i periodene mellom opphold finansieres av de regionale helseforetakene. Deltakere kan få dekket inntil 300 000 kroner til ansatthjelp og 24 000 kroner til utstyr i hjemmet per år av de regionale helseforetakene. Disse utgiftene utgjorde totalt 18 027 207 kroner for 2015. Det synes bare å være pasienter som deltar i utenlandske habiliteringsprogram som kan søke om ekstra bidrag til hjemmetrening mellom opphold i utlandet. Det er ukjent om det gis bidrag til ekstra hjemmetrening for de pasientene som deltar i de intensive habiliteringsprogrammene i Norge. En skjevfordeling der pasienter som deltar i utenlandske opplegg får mulighet til ekstra økonomisk støtte til deltakelse og til trening i mellomperioder, kan bidra til at det blir færre ressurser til drift av den ordinære habiliteringstjenesten.

Samfunnsperspektivet

Ved behandling av St.meld. nr. 8, Om handlingsplan for funksjonshemmede 1998-2001, ble det fattet et vedtak om at «det bør tilstrebes en valgfrihet for familiene i forhold til ulike behandlingsopplegg» (36). Vedtaket synes ikke å bygge på faglige vurderinger. Arbeidsgruppen som ble nedsatt i 1999 for å gi en faglig vurdering av Institutes for the Achievement of Human Potential program (i utredningen kalt Doman-metoden) og lignende for barn med hjerneskade (Lofterød-utvalget) (16) fant tvert imot at de ikke kunne anbefale Institutes for the Achievement of Human Potential program som et alternativt habiliteringstilbud i Norge. Det er ønskelig at all behandling som finansieres via den offentlige helsetjenesten i Norge skal være basert på forskning som dokumenterer klinisk effekt, og at spesialisthelsetjenesten og samfunnets ressurser blir brukt på en fornuftig måte (61).

Rambøll Management Consulting, som utførte en kartlegging av intensiv habilitering av barn og unge i Norge på oppdrag fra Helsedirektoratet (25), ga uttrykk for at det fort-

satt vil være etterspørsel etter alternative habiliteringsopplegg så lenge foreldrene føler at det ordinære tilbudet ikke er godt nok. En ytterligere indikasjon på at det ordinære tilbudet ikke oppleves som tilfredsstillende kommer frem ved søknad om støtte til reise og opphold ved habiliteringsprogrammer utenfor Norge. I søknaden kreves det en bekreftelse fra de regionale helseforetakene om at eksisterende habiliteringstilbud i Norge, er mangelfullt (30). De etablerte norske tilbudene om intensiv habilitering (Program Intensivert habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering) retter seg mot førskolebarn, mens de utenlandske programmene har tilbud til barn i alle aldre. Vi har ingen oversikt over alderen til de som velger utenlandske tilbud. Å frata en gruppe et tilbud uten å kunne tilby noe annet som oppleves like godt, kan imidlertid være moralsk utfordrende. Samtidig har barn og unge med habiliteringsbehov og deres familier ofte behov for et bredt spekter av tilbud og tjenester, gjerne et samlet tverrsektoriell tiltak som i størst mulig grad bør gis på de arenaene barn og unge oppholder seg.

OPPSUMMERING

Finansiering av utenlandske intensive habiliteringstilbud er resultat av en politisk beslutning. Begrunnelsen har vært at familier bør ha valgfrihet i forhold til ulike behandlingsopplegg. Det kan virke uheldig at det ytes økonomisk støtte til deltakelse og ekstra hjemmetrening for pasienter som deltar på intensive habiliteringsprogrammer i utlandet som enten ikke kan vise til forskning om effekt av tiltaket, eller ikke kan vise til forskning som har funnet bedre effekt av utlandstilbudene enn standard behandling. Praksisen kan bidra til å legitimere bruk av ikke-dokumentert behandling. I tillegg kan enkelte av utenlandsprogrammene bidra til å svekke pasientens mulighet for normal sosial deltakelse. Til tross for dette opplever mange å bli godt ivaretatt av personalet ved disse programmene.

Diskusjon

Hovedfunn

Hovedfunnene fra den systematiske oppsummeringen

Vi fant tre kontrollerte studier med til sammen 94 deltakere som vurderte effekten av Institutes for the Achievement of Human Potential program/Family Hope Center program. To av tre studier var svært gamle. Ingen av studiene fant forskjell i effekt ved studieslutt på grovmotorisk, finmotorisk og kognitiv funksjon mellom utenlandsprogrammene og standard behandling. Kvaliteten på dokumentasjonsgrunnlaget var imidlertid svært lav. Studiene fant heller ikke forskjell i effekt over tid mellom Institutes for the Achievement of Human Potential program/Family Hope Center program og standard behandling i dagliglivsaktiviteter, kommunikasjon/språk, atferd og sosial deltakelse. Ingen av studiene hadde vurdert sikkerhet eller familierelaterte utfallsmål, og vi kan derfor ikke konkludere om sikkerhet av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program.

Vi fant ingen kontrollerte studier om Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozi-javkin-metoden, og vi kan derfor ikke konkludere om effekt og sikkerhet ved disse metodene.

Hovedfunnene fra den helseøkonomiske evalueringen

Den helseøkonomiske evalueringen er utført som en kostnadsbeskrivelse i et helsetjenesteperspektiv, med en tidshorison på et år. Totalkostnadene i 2015 for reise og opphold ved habiliteringsprogrammene Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program, Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozi-javkin-metoden, samt trening i perioder mellom utenlandsopphold var på 31 876 669 kroner. Gjennomsnittskostnaden var på 426 146 kroner per deltaker med familie.

Som en sammenligning til kostnader knyttet til de utenlandske habiliteringstilbudene, har vi hentet inn kostnader knyttet til de to norske, regionale habiliteringstilbudene Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering. Kostnader for 2015 ble beregnet til 9 675 202 kroner totalt for Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering. Gjennomsnittskostnadene per deltaker med familie ble da beregnet til 225 005 kroner.

Hovedfunnene fra den etiske vurderingen

Å yte økonomisk støtte til deltakelse og ekstra hjemmetrening for barn med hjerne-skade og deres familie som velger å delta på programmer i utlandet med begrenset eller manglende dokumentasjon for klinisk effekt, er en samfunnsmessig utfordring. Praksisen kan bidra til skjevfordeling av ressursene i pasientgruppen, og til å legitimere bruk av ikke-dokumentert behandling. Enkelte av utenlandsprogrammene kan bidra til å svekke pasientens mulighet for normal sosial deltakelse. Til tross for dette opplever mange å bli godt ivaretatt av personalet ved disse programmene.

Kvaliteten på forskningsresultatene

Kvaliteten på forskningsresultatene om klinisk effekt

Vi inkluderte tre studier med 94 deltakere om effekten av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program. Ingen av studiene var randomiserte kontrollerte studier, og vi vurderte derfor at det var stor risiko for skjevhet i de to første spørsmålene i RoB-verktøyet (om randomisering og skjult allokering). Det kan argumenteres for at det ikke er forsvarlig å randomisere deltakere til et så omfattende og kontroversielt program som IAHP er, slik som de har gjort i studien av von Tetzchner og medarbeidere (10). Det er imidlertid mulig å randomisere deltakere til denne type tiltak, for eksempel gjennom et «stepped-wedge» design med en sekvensiell utrullingsperiode over flere tidsperioder, og med gjentatte målinger (62, 63). En forutsetning for et slikt studiedesign, er imidlertid at alle deltakerne er innstilt på å delta i IAHP-programmet.

Alle studiene hadde kontrollgruppe, og to av studiene hadde matchet deltakeren i tiltaksgruppen og kontrollgruppen. I studien av Sparrow og medarbeidere (9) ble deltakerne matchet individuelt med hensyn til kronologisk alder, mental alder, IQ, kjønn, lengde på opphold i institusjon, og en objektiv skåre på «the Preinstitutional Social Deprivation Scale». I studien av von Tetzchner og medarbeidere (10) ble det rekruttert deltakere i kontrollgruppen som hadde lignende karakteristika som deltakerne i tiltaksgruppen, i forhold til generelle beskrivelser av deltakerne. I studien av Bridgman og medarbeidere (8) ble det ikke gjort forsøk på å matche deltakerne.

Ingen av de inkluderte studiene ga opplysninger om blinding, og vi vurderte derfor at det var stor risiko for skjevhet i de spørsmålene i Rob-verktøyet som omhandlet dette (blinding av deltakere og personell, og blinding av de som vurderte resultatene). Det er ikke mulig å blinde de deltakende familiene, eller de som behandler pasientene. Det er imidlertid mulig at barna som inngår i behandlingen ikke er klar over hvilken gruppe de tilhører, men det avhenger av alder og kognitiv funksjon hos barnet (62). Det hadde vært en styrke for alle studiene om den eller de som foretok målingene og analysene var blindet for gruppetilhørighet. Objektivitet i vurderinger kan økes ved at flere enn én person foretar vurderingene, og at vurderingssituasjonen filmes slik at vurderingene kan etterprøves av andre. I studien av von Tetzchner og medarbeidere (10) var det hovedsakelig to personer som foretok vurderinger av barnet. I tillegg ble vurde-

ringssituasjonene filmet, hvis foreldrene tillot dette. I studien av Sparrow og medarbeidere (9) var det ingen beskrivelse av hvor mange som deltok i vurderingen, ei heller om vurderingen ble filmet. Hos Bridgman og medarbeidere (8) ble alle vurderinger foretatt av én person.

I vurderingene av ufullstendige oppfølgingsdata og selektiv rapportering, valgte vi ikke å trekke for dette i noen av studiene og alle endte med lav risiko for skjevhet. Studien av Bridgman og medarbeidere (8) hadde ikke frafall, men studien ble avsluttet to måneder tidligere enn planlagt fordi to familier hadde sluttet Institutes for the Achievement of Human Potential program og de gjenværende fire familiene hadde gjort store endringer i programmet. Det var ingen frafall i studien av Sparrow og medarbeidere (9). I studien av von Tetzchner og medarbeidere (10) trakk 12 deltakere seg fra studien før start, av ulike grunner. Fra studiens start til slutt var det relativt likt frafall i begge gruppene ved de ulike måletidspunktene. Barna ble ikke fulgt opp til samme tid, men dette ble forsøkt tidskorrigert.

Samlet vurdering av kvaliteten på kunnskapsgrunnlaget

Vi har vurdert at den samlede dokumentasjonen knyttet til våre primære utfallsmål er mangelfull (svært lav kvalitet) målt med GRADE-verktøyet.

I GRADE vurderes seks områder (1); studiedesign, risiko for systematiske skjevheter, konsistens eller samsvar mellom studiene, direktet, presisjon, og rapporteringsskjevheter. Siste punkt inkluderer publikasjonsskjevhet, sterke assosiasjoner, mulige forvekslingsfaktorer og dose-responseeffekter. Områdene kan justeres ned, og i noen tilfeller opp, hvis resultatene gir grunnlag for dette. Studier som ikke er randomiserte kontrollerte studier starter alltid på lav kvalitet fordi faren for å feilbedømme effekten er større enn ved randomiserte kontrollerte studier (1). Våre inkluderte studier var kontrollerte, men ikke randomiserte og de startet derfor på lav kvalitet. Vi har ikke trukket ytterligere for risiko for systematiske skjevheter da dette allerede ligger innebygget i første punkt (studiedesign). Alle studienes relevante utfallsmål (våre primære utfallsmål) pekte i samme retning, og studiene omhandlet relevant populasjon, intervensjon, sammenligning og utfallsmål for forskningsspørsmålet i denne metodevurderingen. Studiene har få deltakere og to av studiene mangler konfidensintervall. Vi valgte å justere ned kvaliteten for alle utfallsmål for dette området. Ingen av de gjenværende områdene ble gradert opp eller ned. Detaljer knyttet til vurderingene finnes i vedlegg 6.

Styrker og svakheter

Mulige skjevheter i oppsummeringsprosessen

Vi søkte etter litteratur i ni databaser og brukte søkeord for de inkluderte habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope og Kozijavkin-metoden, med synonymer. Vi hadde ingen begrensninger i studiedesign, og vi søkte tilbake til databasenes opprinnelse. Vi gikk også gjennom de inkluderte programmenes nettsider for å lete etter pub-

liserte studier. Ingen studier med kontrollgruppe ble identifisert gjennom nettsidesøkene, vi fant kun pasientbeskrivelser og studier av én (kasuistikker) eller flere deltakere (pasientserier). Uten kontrollgruppe kan vi ikke vurdere om det er tiltaket eller barnets naturlige utvikling som er årsak til eventuell bedring i funksjon eller kognisjon. Til tross for grundige litteratursøk, fant vi kun tre studier om Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program som var aktuelle for inklusjon. Vi identifiserte ingen kontrollerte studier om Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation eller Kozijavkin-metoden. Dette er i tråd med funnene i en tidligere systematisk oversikt der det ikke ble identifisert systematiske oversikter eller kontrollerte studier om Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden (3).

I oppsummeringsprosessen var det en ulempe at datapresentasjonen og måleinstrumentene som ble benyttet i de tre inkluderte studiene, var ulike. Dette forhindret oss fra å kunne slå dataene sammen. Til tross for at dataene ikke kunne sammenstilles, var det ingen av studiene som fant forskjeller i effekt over tid mellom tiltakene og sammenligningene.

Styrker og svakheter ved den helseøkonomiske evalueringen

Den helseøkonomiske evalueringen er utført som en kostnadsbeskrivelse av de aktuelle intensive habiliteringsprogrammene. Helsedirektoratets veileder for økonomisk evaluering av helsetiltak anbefaler at helseøkonomiske evalueringer utføres som en kostnad-per-QALY analyse («cost-utilityanalysis», CUA), og dermed at QALY brukes som mål på størrelsen av helsegevinster (38). Litteraturgjennomgangen viste at det finnes utilstrekkelig dokumentasjon på effekt ved de aktuelle habiliteringsprogrammene. Vi konkluderte derfor med at det ikke var hensiktsmessig å utføre en CUA for evalueringen av habiliteringsprogrammene.

Vi har brukt en tidshorisont på et år. I følge, blant annet, Helsedirektoratets anbefaling for økonomiske evalueringer i helsesektoren bør tidshorisonten i dette tilfellet være så lang at alle viktige forskjeller mellom programmenes kostnader fanges opp (38). I dette tilfellet kunne det vært aktuelt å beregne kostnader i de årene man kan delta på programmene. Eventuelt lenger hvis effekt og sikkerhet på lang sikt hadde vært inkludert.

Vi brukte statistikk over antall deltakere ved utenlandsprogrammene i 2015, fra Helsedirektoratet/Helfo, som viser 86 deltakere. Vi mottok også oversikt over antall deltakere samme år fra de regionale helseforetakene. De regionale helseforetakene sine data viser et antall på 68 unike deltakere i hele Norge (18 deltakere forskjell fra Helsedirektoratet/Helfo). Vi har forsøkt å forklare denne forskjellen, men har ikke kommet til en sikker konklusjon. Det er mulig at de 18 deltakerne ikke søker om støtte til trening og utstyr i hjemmet fra de regionale helseforetakene, eller at deltakere hopper av før de søker om dette, og derfor ikke er registrert. Deltakere er heterogene, og kostnader vil kunne variere. Noen deltakere trener etter flere metoder i utlandet.

Usikkerhet er tilstede ved kostnadsbeskrivelsene for Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering. Vi har tatt utgangspunkt i totale driftskostnader og budsjett ved de respektive enhetene. Gjennomsnittskostnad for reise ved Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering er antatt å være lik som ved Petø-tilbudet i Helse Sør-Øst. Reisekostnader er beregnet for aldersgruppen 0-18 år, noe som er utover aldersgruppen 0-6 år som Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering dekker. Oppholdskostnader for Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering er ikke inkludert da dette ikke var med i driftsregnskapene vi mottok. Det er ulikhet i antall opphold, og reiseutgiftene kan dermed variere mellom Petø-tilbudet og Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering. Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering har 43 deltakere. Ved en økning i pasientvolum er vi ikke kjent med om dette vil forårsake økte eller reduserte kostnader totalt og per pasient.

Alder til deltakere ved utenlandsprogrammene og Program Intensivert Habilitering og Program Intensiv Trening/Habilitering skiller seg fra hverandre. Ved utenlandsprogrammene er det tilfeller med deltakere fram til og over 18 år, mens de norske programmene er rettet mot førskolealder.

Hvor generaliserbare er resultatene?

Hvor dekkende og nyttige er forskningsresultatene om effekt fra den systematiske oppsummeringen?

Studiene av Bridgman og medarbeidere (8) og von Tetzchner og medarbeidere (10) inkluderte deltakere som deltok i program gitt av Institutes for the Achievement of Human Potential og/eller Family Hope Center, og vurderer dermed effekten av de fulle programmene. I studien av Sparrow og medarbeidere (9) har det blitt påpekt at det modifiserte Institutes for the Achievement of Human Potential program var lite intensivt sammenlignet med det ordinære Institutes for the Achievement of Human Potential program (8, 10). Programmet hos Sparrow og medarbeidere (9) besto av to timers trening, fem dager i uka i ett år. Dette tilsvarer om lag 520 timer totalt, hvis det ble gjennomført i alle årets uker. Vanligvis vil Institutes for the Achievement of Human Potential program innebære fra åtte til 12 timers trening hver eneste dag i året (3). Dette tilsvarer rundt 2920 til 4380 timer totalt. Det kan derfor argumenteres med at denne studien ikke måler effekten av Institutes for the Achievement of Human Potential program slik det gjennomføres ved instituttet. Det har også blitt stilt spørsmål om populasjonen i studien av Sparrow og medarbeidere er relevant for populasjonen som oftest benytter seg av Institutes for the Achievement of Human Potential program, da den kun besto av barn med dyp psykisk utviklingshemming som bodde på institusjon (8). Studien av Bridgman og medarbeidere (8) fant en forbigående positiv effekt av Institutes for the Achievement of Human Potential program i utviklingsprogresjon (språk og selvhjelp), sammenlignet med standard behandling (som beskrevet i resultatkapittelet). Dette har av andre blitt tolket til at resultatet kunne være knyttet til at foreldrene innledningsvis tok stor del i barnas behandling (64). Forskjellen mellom de to gruppene flatet ut over tid. Etter 10 måneder hadde to av seks familier sluttet med Institutes for

the Achievement of Human Potential program, mens flere av de andre familiene hadde gjort store endringer i programmet (8). Bridgman og medarbeidere beskriver lignende forløp i andre studier om Institutes for the Achievement of Human Potential program, og forklarer dette med initial entusiasme for programmet hos foreldrene, og påfølgende stort frafall på grunn av utmattelse knyttet til det ekstreme treningsregimet (8). To av de tre inkluderte studiene, Sparrow og medarbeidere (9) og Bridgman og medarbeidere (8), ble gjennomført for 35-40 år siden. Dette kan ha betydning for generaliserbarheten av resultatene. Det har skjedd mye på habiliteringsområdet både nasjonalt og internasjonalt siden disse studiene ble publisert. Tiltaket i regi av Institutes for the Achievement of Human Potential synes imidlertid å være lite endret siden det ble utviklet på midten av 50-tallet.

Doman og medarbeidere (65) publiserte i 1960 en studie som inkluderte 76 pasienter med ulike hjerneskader som deltok i Institutes for the Achievement of Human Potential program. Studien har ingen kontrollgruppe som ikke fikk behandling, og er derfor ikke inkludert i kunnskapsgrunnlaget i vår metodevurdering. Deltakerne var mellom ett og ni år, og de ble fulgt opp minimum 6 måneder og opp til to år. Studien har blitt kritisert for å ha svakheter i utførelse, vurdering av resultater og konklusjoner. De inkluderte barna hadde ulik alder og diagnoser, behandlingstiden varierte fra seks til 20 måneder, og kriterier for bedring var mangelfullt beskrevet (57, 59). Studien av Doman og medarbeidere (65) rapporterte om bedring i mobilitet hos barna. Ved slutten av studien var det imidlertid 45 av 56 barn som fortsatt ikke kunne gå, og av de 11 som kunne gå på egenhånd var 9 under to år ved starten av studien (59). Mangel på kontrollgruppe gjør at man ikke kan si noe om hvordan det hadde gått med annen type oppfølging, og det er mulig at naturlig modning og utvikling kunne resultert i lignende resultat, særlig hos svært unge deltakere (59).

Hvor dekkende er funnene fra den helseøkonomiske evalueringen?

I den økonomiske evalueringen har vi brukt helsetjenesteperspektivet. Dette er det relevante perspektivet for Beslutningsforum i Nye metoder, hvor fordeling av ressurser i spesialisthelsetjenesten vurderes. I følge Helsedirektoratets veileder for økonomisk evaluering av helsetiltak bør samfunnsperspektivet tas i bruk (38). I samfunnsperspektivet inkluderes alle kostnader, uavhengig av hvem som bærer kostnaden eller hvor i samfunnet de påløper. Helsetjenesteperspektivet fokuserer kun på helsesektoren, og ressursbruk kan dermed være en kostnad fra samfunnsperspektivet, men ikke fra helsetjenesteperspektivet (66). Kostnader som er ekskludert er kostnader påløpt av redusert deltakelse i arbeidslivet (eller fritid), og opplæringspenger, for nærpersoner som følger barna under trening, som skal dekke tapt arbeidsinntekt (67, 68). Dette er kostnader som påløper ved deltakelse i samtlige program, og vil sannsynligvis ikke utgjøre en stor forskjell mellom programmene. Vi har vært i kontakt med NAV for å få en oversikt over hvor mye disse kostnadene kan utgjøre, men NAV fant ikke habiliteringsprogrammene i utbetalingsregistrene. Dette skyldtes mest sannsynlig at kostnadene føres på generelle utbetalingsposter som ikke lar seg bryte ned på nivåer (69). Videre nevnes det av faggruppen at foreldre eventuelt kan kreve økt grunnstønning som følge av for eksempel slitasje på klær, og eventuelt ekstrakostnader til annet i forbindelse med tre-

ning. I tillegg finnes tilfeller hvor enkelte har bygget om hus slik at det er tilpasset treningsopplegget, dette er finansiert med tilskudd og lån fra Husbanken. Dette er punkter som sannsynligvis ville oppstått uavhengig av deltakelse ved habiliteringsprogram eller ikke, da funksjonsnedsettelsen i seg selv kan være årsaken (67). Andre punkter som ikke er inkludert, og har blitt nevnt i forbindelse med finansiering er kommunale tilbud, hjelpemiddelsentralen, kostnader forbundet med hjelp fra lokale fagfolk og egenandeler (42, 51, 53).

Budsjettvirkninger for spesialisthelsetjenesten i et nasjonalt perspektiv ønskes belyst via økonomiske evalueringer. Budsjettvirkninger defineres som merutgiftene, det vil si de totale utgiftene ved å innføre den nye metoden minus de totale utgiftene ved ikke å gjøre det. I dette tilfellet vil det dreie seg om budsjettvirkninger for helsetjenesten ved en eventuell utfasing av tilbud om utenlandsprogram. Ettersom det er usikkert hva som kan være et alternativt habiliteringstilbud for denne pasientgruppen etter eventuell utfasing av de utenlandske programmene, har vi valgt å ikke oppgi tall for budsjettvirkninger. Det kan være aktuelt å allokere besparelsene til utvidelse av eksisterende eller etablering av nye tilbud til samme gruppe.

Overensstemmelse med andre oversikter

Stemmer den systematiske oversikten overens med andre oversikter?

Vi kjenner ikke til andre systematiske oversikter der klinisk effekt ved habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden, er vurdert. Nasjonalt kunnskapscenter for helsetjenesten gjennomførte i 2008 en kunnskapsoppsummering om intensiv trening/habilitering til barn med medfødt eller ervervet hjerneskade (3), der også de utenlandske habiliteringsprogrammene inngikk. Forfatterne av kunnskapsoppsummeringen fant imidlertid ingen systematiske oversikter eller kontrollerte studier om de utenlandske habiliteringsprogrammene, og etterlyste forskning på området (3).

Det er publisert en rekke vurderinger av de utenlandske habiliteringsprogrammene, og spesielt vurderinger og uttalelser knyttet til Institutes for the Achievement of Human Potential program (59, 64, 70, 71). I Norge foreligger det flere innspill og vurderinger av de utenlandske habiliteringstilbudene, og noen av disse er beskrevet i «Handlingsplan for habilitering av barn og unge» fra 2009 (37) og kort gjengitt her. I handlingsplanen vises det til utredningen fra Statens helsetilsyn (Lofterød-rapporten) (16), der det konkluderes med at man ikke kan anbefale Institutes for the Achievement of Human Potential program (i utredningen kalt Doman-metoden) som et alternativt habiliteringstilbud i Norge. Det vises også til innspill fra Barnenevrologisk interessegruppe (BIG) i 2006, der det blant annet fremheves *«at spesialisthelsetjenesten ikke kan ta faglig ansvar for behandling og tiltak som ikke har det nødvendige teoretisk naturvitenskapelige grunnlag og hvor effekten ikke kan dokumenteres gjennom anerkjent forskning»* (37). Videre vises det til at Sosial- og helsedirektoratet (nå Helsedirektoratet) i 2006 gjennomførte en vurdering av Kozijavkin-metoden etter anmodning fra Helse- og omsorgsdepartementet. Der ble det blant annet konkludert med: *«Behandlingen består av*

flere elementer. Noen av disse finnes innenfor norsk habilitering. Noen var tidligere en del av det norske tilbudet, men er nå forlatt som følge av nyere forskning og erstattet av andre metoder. Noen elementer er ukjente innenfor norsk habilitering. Statistikken sentret viser til i forhold til behandlingseffekt er ikke basert på kontrollert vitenskapelig metode» (37). I handlingsplanen vises det også til en rapport fra Sosial- og helsedirektoratet (Skjeldalrapporten (36)) og et bokkapittel om «Ukonvensjonelle behandlingsprogrammer» av von Tetzchner, som oppsummerer mulige årsaker til at foreldre velger utenlandske programmer som fagfolk ikke anbefaler (37). Dette inkluderer at foreldrene må erfare at habiliteringstilbudets mengde og kvalitet er bra, og at de selv ønsker få mulighet til å være en ressurs i habiliteringen. I tillegg antydes det at valg av utenlandske tilbud kan være et signal om at vanlig praksis og informasjon i Norge ikke er god nok for foreldrene. Andre mulige årsaker som trekkes frem er at det kan være vanskelig for noen foreldrene å anerkjenne barnets funksjonsnedsettelse og at målet om normalitet hos barnet, som loves i enkelte utenlandske tilbud, gir trøst (37).

Stemmer den helseøkonomiske evalueringen overens med andre studier?

Vi har ikke funnet andre helseøkonomiske evalueringer som tar for seg de intensive habiliteringsprogrammene for hele Norge. Det finnes imidlertid en norsk kostnadsanalyse som tar for seg deltakere ved habiliteringsprogrammene i Helse Nord RHF i perioden 2003-2011 (72). Vi har valgt å ikke sammenligne våre kostnader med denne studien da blant annet perspektiv, tidshorisont, pasientdata, og andre forutsetninger avviker. I studien av Norum og medarbeidere (72) oppfylte 15 pasienter krav til finansiering. Analysen resulterte i en diskontert kostnad på 121 348 Euro per pasient, fra et spesialisthelsetjenesteperspektiv. Videre resulterte analysen i at minst 2,13 kvalitetsjusterte leveår (QALYs) per pasient må være vunnet for at habiliteringsprogrammene skal kunne være kostnadseffektive.

Resultatene betydning for praksis

Vi har i denne metodevurderingen ikke funnet dokumentasjon for at programmene i regi av Institutes for the Achievement of Human Potential og Family Hope Center gir bedre resultater over tid på grovmotorisk, finmotorisk eller kognitiv funksjon enn standard behandling. Ingen studier vurderte sikkerhet ved programmene gitt av Institutes for the Achievement of Human Potential og Family Hope Center. Vi fant ingen kontrollerte studier som undersøkte effekt og sikkerhet ved Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden.

De utenlandske habiliteringsprogrammene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program og Kozijavkin-metoden, og Institutes for the Achievement of Human Potential program spesielt, har blitt utsatt for faglig kritikk helt tilbake fra 1960-tallet. Norske fagmiljøer har gjennom innspill og vurderinger de siste 17 årene, gitt uttrykk for at de ikke kan anbefale eller følge opp utenlandske habiliteringstilbud. Noen regionale habiliteringstilbud som blant annet har tatt utgangspunkt i foreldrenes behov, har siden midten av 2000-tallet blitt etablert i Norge. Andre tilbud er under oppbygging. Det er

imidlertid usikkert om alle helseregioner har fast etablerte, intensive habiliteringstilbud. De tilbudene som er etablert i Norge er hovedsakelig rettet mot førskolebarn. Dette i motsetning til de utenlandske tilbudene som retter seg mot barn i alle aldre. For å imøtekomme et behov for intensiv habilitering hos eldre barn som i dag kan få et tilbud gjennom de utenlandske programmene, kan det være aktuelt å diskutere behovet for å bygge opp norske intensive habiliteringstilbud for barn i skolealder.

For å kunne tilby kunnskapsbaserte helse- og omsorgstjenester, bør forskningsbasert kunnskap integreres med erfaringskunnskap hos fagpersoner og brukere samt konteksten.

Å jobbe kunnskapsbasert vil dermed si at man bruker:

- **forskningsbasert kunnskap** der man systematisk innhenter forskning og kritisk vurderer funnene
- **erfaringsbasert kunnskap hos fagfolk**, som kan være ferdigheter og vurderingsevne, kommunikasjon og relasjoner utviklet i praksis
- **brukerkunnskap og brukermedvirkning**, som kan være kunnskap, erfaringer, verdier, ønsker og behov hos brukere, pasienter eller pårørende

Disse tre elementene vurderes i en **kontekst**. Konteksten er det miljøet eller den settingen som man skal utøve kunnskapsbasert praksis i. Her kan geografisk beliggenhet, tilgjengelige ressurser, lovverk og retningslinjer spille inn på beslutningen.

Funnene fra denne systematiske oversikten må ses i en sammenheng med den erfaringsbaserte kunnskapen, brukerkunnskapen og konteksten før en beslutning bør tas.

Kunnskapshull

Kunnskapsgrunnlaget om klinisk effekt knyttet til habiliteringstilbudene i regi av Institutes for the Achievement of Human Potential og Family Hope Center er mangelfullt. Habiliteringstilbudene Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin mangler dokumentasjon for klinisk effekt fra kontrollerte studier. Det er behov for mer og bedre forskning om effekt og sikkerhet knyttet til alle de utenlandske habiliteringstilbudene. Dette gjelder spesielt hvis tilbudene skal tilbys finansiert av Helfo og de regionale helseforetakene, siden behandlingsmetoder som tilbys i helsetjenesten skal være basert på forskning som dokumenterer effekt (37).

Ved igangsettelse av nye studier kan det være aktuelt å ta utgangspunkt i våre inklusjonskriterier (PICO) i denne metodevurderingen, og kort gjengitt her:

- Populasjon: barn og unge med hjerneskade
- Intervensjon: Institutes for the Achievement of Human Potential program, Family Hope Center program, Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation, Kozijavkin-metoden
- Sammenligning: andre habiliteringsprogram, standard behandling

- Utfall: motorikk, kognisjon, livskvalitet og sikkerhet

Studiedesign: randomiserte kontrollerte studer (primært), eventuelt ikke-randomiserte kontrollerte studier med målinger før og etter intervensjon.

Oppfølgingstiden bør være minimum ett til to år. Siden pasientgrunlaget er begrenset i Norge, vil det være aktuelt med internasjonalt samarbeid.

Konklusjon

Vår metodevurdering viser at det ytes betydelig økonomisk støtte til deltakelse og ekstra hjemmetrening til pasienter som deltar i utenlandske programmer. Studier som har undersøkt effekten av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program har ikke funnet bedre effekt av tiltakene enn standard behandling, men kvaliteten på kunnskapsgrunnlaget er svært lav. Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation og Kozijavkin-metoden mangler kontrollerte studier om effekt av tiltakene. Ut i fra et etisk perspektiv kan fortsatt offentlig finansiering av utenlandske intensive habiliteringstilbud bidra til å legitimere bruk av ikke-dokumentert behandling. Enkelte av utenlandsprogrammene kan bidra til å svekke pasientens mulighet for normal sosial deltakelse. Til tross for dette opplever mange å bli godt ivaretatt av personalet ved disse programmene.

Vi inkluderte tre studier om klinisk effekt av Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program, hvorav to var svært gamle. Studiene inkluderte til sammen 94 pasienter med utviklingshemming som følge av hjerne-skade. Ingen av studiene fant forskjeller i grovmotorisk, finmotorisk eller kognitiv funksjon ved studieslutt mellom intervensjonene og standard behandling. Kvaliteten på dokumentasjonsgrunnlaget var svært lav. Ingen av disse studiene vurderte sikkerhet ved tiltakene. Vi fant ingen kontrollerte studier om effekt eller sikkerhet ved Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation eller Kozijavkin-metoden, og har derfor ikke grunnlag til å trekke konklusjoner om disse tiltakene.

Kostnadene for de utenlandske habiliteringsprogrammene kan deles inn i to grupper, program-, reise-, og oppholdskostnader samt kostnader knyttet til trening og utstyr i hjemmet. Trening og utstyr i hjemmet utgjør den største kostnaden. For 2015 var total-kostnadene knyttet til utenlandske habiliteringsprogram på 31 876 669 kroner, mens gjennomsnittskostnadene per deltaker med familie var på 426 146 kroner. To norske intensive program hadde i 2015 en beregnet total-kostnad på 9 675 202 kroner, og en gjennomsnittskostnad per deltaker med familie på 225 005 kroner.

Referanser

1. Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten. Slik oppsummerer vi forskning. Håndbok for Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten. 4. reviderte utgave. Oslo: Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten; 2015
2. Helse- og omsorgsdepartementet. Forskrift om habilitering og rehabilitering, individuell plan og koordinator. Lovdata. [Oppdatert 15.09.16; Lest 09.11.16]. Tilgjengelig fra: <https://lovdata.no/dokument/SF/forskrift/2011-12-16-1256>.
3. Myrhaug H, Østensjø S, Lerdal B, Hammerstrøm K, Risberg K, Dahm K, et al. Intensiv trening/habilitering til barn med medfødt og ervervet hjerneskade. Oslo: Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten; 2008. (Rapport nr 27).
4. Myrhaug HT, Ostensjo S, Larun L, Odgaard-Jensen J, Jahnsen R. Intensive training of motor function and functional skills among young children with cerebral palsy: a systematic review and meta-analysis. BMC Pediatr 2014;14.
5. ABR Danmark. ABR-Terapi Metoden. ABR Danmark. [Lest 20.2.2017]. Tilgjengelig fra: <http://abr-denmark.com/da/home/om-abr-terapi/>.
6. Blyum L. On ABR and beyond... Empowering the Special Parents of Children with Special Needs. Blyum, L. [Oppdatert 26.11.15; Lest 25.10.16]. Tilgjengelig fra: http://blyum.typepad.com/on_abr_and_beyond/.
7. Institutes for the Achievement of Human Potential. Did Glenn Doman create The Doman Method? IAHP. [Lest 20.2.2017]. Tilgjengelig fra: <https://iahp.org/frequently-asked-questions-about-the-glenn-doman-method/>
8. Bridgman G, Cushen W, Cooper D, Williams R. The evaluation of sensorimotor-patterning and the persistence of belief. British Journal of Mental Subnormality 1985;31(61, Pt 2):67-79.
9. Sparrow S, Zigler E. Evaluation of a patterning treatment for retarded children. Pediatrics 1978;62(2):137-150.
10. von Tetzchner S, Verdel M, Barstad BG, Gravas EM, Jahnsen R, Krabbe S, et al. The effect of interventions based on the programs of The Institutes for the Achievement of Human Potential and Family Hope Center. Dev Neurorehabil 2013;16(4):217-229.
11. The Family Hope Center. The Family Hope Center.[Oppdatert 2016; Lest 09.11.16]. Tilgjengelig fra: <http://familyhopecenter.com/>.

12. International Clinic of Rehabilitation. Kozyavkin Method.[Oppdatert 2016; Lest 26.10.16]. Tilgjengelig fra: <http://www.reha.lviv.ua/>.
13. Myrhaug HT. Definisjoner og målingsverktøy med mer. Målingsverktøy brukt i SR juli 2013 p. 7.
14. Helse- og omsorgsdepartementet. Lov om pasient- og brukerrettigheter (pasient- og brukerrettighetsloven). <https://lovdata.no/dokument/NL/lov/1999-07-02-63>
15. Barne- og familiedepartementet. FNs konvensjon om barnets rettigheter. Vedtatt av De forente nasjoner 20 november 1989, Ratifisert av Norge 8 januar 1991, Revidert oversettelse mars 2003 med tilleggsprotokoller. Barne- og familiedepartementet 2003.
https://www.regjeringen.no/globalassets/upload/kilde/bfd/bro/2004/0004/dd_d/pdfv/178931-fns_barnekonvensjon.pdf
16. Statens helsetilsyn. Faglig vurdering av alternative treningsopplegg som Domanmetoden og lignende for barn med hjerneskader. Oslo: Statens helsetilsyn; 2000. (IK-2704).
17. Krogstad JM. Hva er ervervet hjerneskade? 6. utgave. Kognitiv Rehabiliteringsenhet: Sunnaas sykehus; 2015
https://www.sunnaas.no/Documents/Brosjyrer/Hva_er_ervervet_hjerneskade.PDF
18. Lundeby H, Tøssebro J. Livsløp i familier med funksjonshemmete barn. I: Tøssebro J, red. Funksjonshemming - politikk, hverdagsliv og arbeidsliv. Oslo: Universitetsforlaget; 2009. s. 149-164.
19. Barne- ungdoms- og familiedirektoratet. Familien og hjelpeapparatet. Bufdir. [Lest 07.02.17]. Tilgjengelig fra:
https://www.bufdir.no/Statistikk_og_analyse/Nedsatt_funksjonsevne/Familien_og_hjelpeapparatet/#info-graphics-header.
20. Lerdal B, Sørensen K, Vestrheim I, Skranes J. Stress og mestring hos foreldre til barn med cerebral parese. Tidsskrift for norsk psykologforening 2013;50:901-903.
21. Murphy NA, Christian B, Caplin DA, Young PC. The health of caregivers for children with disabilities: caregiver perspectives. Child Care Health Dev 2007;33(2):180-187.
22. Trivette CM, Dunst CJ, Hamby DW. Influences of family-systems intervention practices on parent-child interactions and child development. Topics in Early Childhood Special Education 2010;30(1):3-19.
23. Demiri AS, Gundersen T. Tjenestetilbudet til familier som har barn med funksjonsnedsettelse. Norsk institutt for forskning om oppvekst, velferd og aldring: Senter for velferds- og arbeidslivsforskning (SVA) på Høgskolen i Oslo og Akershus (HiOA); 2016. (NOVA Rapport 7/2016).

24. Novak I, McIntyre S, Morgan C, Campbell L, Dark L, Morton N, et al. A systematic review of interventions for children with cerebral palsy: state of the evidence. *Dev Med Child Neurol* 2013;55(10):885-910.
25. Helsedirektoratet. Kartlegging av intensiv habilitering av barn og unge. Kartlegging utført av Rambøll Management Consulting. Oslo: Helsedirektoratet; 2013. (Rapport).
26. Sørlandet sykehus HF. PIH: Program intensivert habilitering. Et familiesentrert habiliteringsprogram for førskolebarn med funksjonsnedsettelse. 2013. http://www.habu.no/digimaker/documents/Informasjonsbrosjyre_PIH_18.12.15_E5R7eI72515.pdf
27. Vindstrand A. Årsmelding 2015 for: Program Intensiv Trening/Habilitering – PITH. 2016.
28. Universitetssykehuset Nord-Norge (UNN) Tromsø. Program Intensiv habilitering Nord. Et familiesentrert habiliteringsprogram for førskolebarn med funksjonsnedsettelse. UNN Tromsø: Barnehabiliteringen, Barne- og ungdomsklinikken.
29. Rikstrykdeverket. Rundskriv. §5-22 - Bidrag til spesielle formål. NAV. [Oppdatert 12.10.16; Lest 24.10.16]. Tilgjengelig fra: <https://www.nav.no/rettskildene/Rundskriv/5-22-bidrag-til-spesielle-form%C3%A5I>.
30. Grøstad H. Personlig kommunikasjon (e-post) med Hanne Grøstad, seksjonssjef, Helfo utland. 2016.
31. Sommer K. Advanced Biomechanical Rehabilitation. A considerable beneficial treatment method for children with Cerebral Palsy? And Deep tissue manipulative bodywork in comparison to classic rehabilitation in Cerebral Palsy. Groningen, Netherlands: Hanzehogeschool Groningen; 2010.
32. The Institutes for the Achievement of Human Potential. The Institutes for the Achievement of Human Potential.[Oppdatert 2016; Lest 25.10.16]. Tilgjengelig fra: <https://www.iahp.org/>.
33. Forening for Intensiv Stimulering av Hjerneskadde (FISH). Forening for Intensiv Stimulering av Hjerneskadde.[Oppdatert 2013; Lest 10.11.16]. Tilgjengelig fra: <http://www.iahp.no/>.
34. Hjernebarnet. Family Hope Center. Landsforeningen for foreldre der hjemmetræner deres hjerneskadede barn. [Oppdatert 2016; Lest 09.11.16]. Tilgjengelig fra: <http://www.hjernebarnet.dk/168/>.
35. Kozyavkin Ve. Intensive Neurophysiological Rehabilitation System — the Kozyavkin Method. A Manual for Rehabilitation Specialists. Livi: "Papuga" Publishing House; 2012.

36. Sosial og helsedirektoratet. Habilitering av barn. En faglig vurdering og tilråding. Rapport fra en arbeidsgruppe nedsatt av Sosial og helsedirektoratet. Oslo: Sosial og helsedirektoratet; 2004
37. Helsedirektoratet. Handlingsplan for habilitering av barn og unge. 09/2009. Oslo: Helsedirektoratet; 2009. (IS-1692).
38. Helsedirektoratet. Økonomisk evaluering av helsetiltak – en veileder [Economic evaluation of healthcare interventions - a guide]. IS-1985.
39. Helfo. Helfos organisasjon.[Lest 8. desember]. Tilgjengelig fra: <https://helfo.no/om-helfo/organisasjonen/helfos-organisasjon>.
40. Pasientreiser. Om pasientreiser.[Oppdatert 2016; Lest 21. november]. Tilgjengelig fra: <https://pasientreiser.no/om-pasientreiser>.
41. Helfo utland. Personlig kommunikasjon med Helfo utland, via e-post. 3104 Tønsberg2016.
42. Helse Nord RHF. Personlig kommunikasjon med Helse Nord RHF, Arnborg Ramsvik, Rådgiver somatikk, Fagavdelingen. 2016.
43. Carlsen NC. Personlig kommunikasjon med Helsedirektoratet, via Nina Cecilie Carlsen, Seniorrådgiver, Divisjon helseøkonomi og finansiering, avdeling behandlingsrefusjon. 2017.
44. Helse Midt RHF. Personlig kommunikasjon med Helse Midt RHF, via Ingrid Storhaug, Helsefaglig rådgiver, Kontor for utenlandsbehandling, Fagavdelingen, St. Olavs Hospital. 2016.
45. Helse Vest RHF. Personlig kommunikasjon med Helse Vest, via Ingeborg A. Ersdal, Rådgiver. 2016.
46. Vestrheim IE. Personlig kommunikasjon med Ida E. Vestrheim, enhetsleder Program Intensivert Habilitering (PIH), Sørlandet sykehus HF 2016.
47. Staurheim GV. Personlig kommunikasjon med Guro V. Staurheim, Spesialfysioterapeut/stedlig koordinator, PITH | Seksjon for nevrohabilitering-barn | Barneavdeling for nevrofag | Barne- og ungdomsklinikken, Oslo universitetssykehus HF. 2016.
48. Vestrheim IE. Personlig kommunikasjon med Ida E. Vestrheim, enhetsleder/Can.san ved Program Intensiv Habilitering, Sørlandet Sykehus HF 2016.

49. Medisinsk klinikk Sørlandet sykehus. Årsrapport 2015: Habileringsseksjonen for barn og unge (HABU), Bane- og ungdoms-avdelingen (BUA). Sørlandet sykehus HF; 2016
http://www.habu.no/digimaker/documents/Aarsrapport_2015_tkVhSz73615.pdf
50. Vindslund A. Årsmelding 2015 for: Program Intensiv Trening/Habilitering – PITH. 2016
51. Pasientreiser Helse Sør-Øst RHF. Personlig kommunikasjon med Pasientreiserkontoret Helse Sør-Øst, via Rønnaug Haugen, Seksjonsleder, Enhet for reiseoppgjør. 2016.
52. Pasientreiser Helse Vest RHF. Personlig kommunikasjon med Pasientreiserkontoret Helse Vest, via Vidar Øvrebø, Avdelingsjef. 2016.
53. Helse Sør-Øst RHF. Personlig kommunikasjon med Helse Sør-Øst, via Ulrik Sverdrup, Spesialrådgiver, Avdeling for medisinsk og helsefaglig analyse. 2016.
54. Rikstrygdeverket Helsetjenestekontoret. Rundskriv § 5-22 – Bidrag til spesielle formål. Kurs/samlinger i utlandet. Tilføyd 3/01, endret 1/14 ed1997.
<https://www.nav.no/rettskildene/Rundskriv/5-22-bidrag-til-spesielle-form%C3%A5l>
55. Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten. Slik oppsummerer vi forskning. Vedlegg 2: Sjekklistene. Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten. [Oppdatert 2011; Lest 19.09.2016]. Tilgjengelig fra:
<http://kilden.kunnskapssenteret.no/h%C3%A5ndb%C3%B8ker/h%C3%A5ndbok-slik-oppsummerer-vi-forskning/attachment/17943?ts=13d695ccbc3>.
56. Barne- likestillings- og inkluderingsdepartementet. Konvensjonen om rettighetene til mennesker med nedsatt funksjonsevne. Barne- likestillings- og inkluderingsdepartementet; 2008.
https://www.regjeringen.no/globalassets/upload/bld/sla/funk/konvensjon_web.pdf
57. Tannock R. Doman Delacato method for treating brain injured children: an assessment. Physiother Can 1976;28(4):203-209.
58. Gravas EM, Barstad BG, Jahnsen R, Jensen B, Mottlau J, Schiørbeck H, et al. Fordi det gir håp. En sammenligning av tiltak etter Doman-programmene og det ordinære habiliteringstilbudet i Norge og Danmark. Ergoterapeuten 2016(1):66-77.
59. Cohen HJ, Birch HG, Taft LT. Some considerations for evaluating the Doman-Delacato "patterning" method. Pediatrics 1970;45(2):302-314.
60. Bio-Rehab for Kids inc. What is ABR? Bio-Rehab for Kids inc. [Oppdatert Copyright 2008; Lest 17.01.17]. Tilgjengelig fra:
<http://www.biorehabforkids.org.au/>.

61. Sekretariatet for nye metoder. Nye metoder - Bakgrunn og formål. Nye metoder. [Oppdatert 2016; Lest 12.01.17]. Tilgjengelig fra: <https://nyemetoder.no/om-systemet/bakgrunn-og-formal>.
62. Dahm K. Effekten av intensiv habilitering basert på Doman-programmene (Institutes for the Achievement of Human Potentials og Family Hope Center). Kritisk vurdering av rapport. Svar på henvendelse fra avdeling rehabilitering og sjeldne tilstander i Helsedirektoratet. Internt notat.
63. Brown CA, Lilford RJ. The stepped wedge trial design: a systematic review. BMC Med Res Methodol 2006;6:54.
64. American Academy of Pediatrics. The Treatment of Neurologically Impaired Children Using Patterning. Pediatrics 1999;104(5):1149-1151.
65. Doman RJ, Spitz EB, Zucman E, Delacato CH, Doman G. Children with severe brain injuries. Neurological organization in terms of mobility. JAMA 1960;174:257-262.
66. Elliott R, & Payne, K. . Essentials of Economic Evaluation in Healthcare. . London, UK: Pharmaceutical Press; 2005.
67. Olsen HF. Personlig kommunikasjon med Handikappede Barns Foreldreforening, via Hanne Fjerdingby Olsen, Leder 2016.
68. Arbeids- og velferdsdirektoratet N. Opplæringspenger. Tilgjengelig fra: <https://www.nav.no/no/Person/Familie/Sykdom+i+familien/oppl%C3%A6ringspenger>
69. Arbeids- og velferdsdirektoratet N. Personlig kommunikasjon med NAV, via Lars Sutterud, Statistikkseksjonen, Kunnskapsavdelingen 2016.
70. American academy of pediatrics policy statement: the Doman-Delacato treatment of neurologically handicapped children... from Pediatrics, November 1982. Perinatal Press 1982;6(10):143-145.
71. Doman-Delacato Treatment of Neurologically Handicapped Children. Neurology 1967;17(7):637.
72. Norum J, Ramsvik A, Tjeldnes K. Brain damage treated with non proven intensive training 2003-2011: a Norwegian cost analysis. Global Journal of Health Science 2012;4(6):179-184.
73. Hur J, Cochrane R. Academic performance of children with cerebral palsy: A comparative study of conductive education and British special education programmes. British Journal of Developmental Disabilities 1995;41(1):33-41.
74. Hur JJ-A. Skills for independence for children with cerebral palsy: A comparative longitudinal study. International Journal of Disability, Development and Education 1997;44(3):263-274.

75. Blank R, von Kries R, Hesse S, von Voss H. Conductive education for children with cerebral palsy: effects on hand motor functions relevant to activities of daily living. *Arch Phys Med Rehabil* 2008;89(2):251-259.
76. Bochner S, Center Y, Chapparo C, Donnelly M. How effective are programs based on conductive education? A report of two studies. *Journal of Intellectual and Developmental Disability* 1999;24(3):227-242.
77. Catanese AA, Coleman GJ, King JA, Reddihough DS. Evaluation of an early childhood programme based on principles of conductive education: the Yooralla project. *J Paediatr Child Health* 1995;31(5):418-422.
78. Coleman GJ, King JA, Reddihough DS. A pilot evaluation of conductive education-based intervention for children with cerebral palsy: the Tongala project. *J Paediatr Child Health* 1995;31(5):412-417.
79. Cottam P, McCartney E, Cullen C. The effectiveness of conductive education principles with profoundly retarded multiply handicapped children. *Br J Disord Commun* 1985;20(1):45-60.
80. Dalvand H, Dehghan L, Feizy A, Amirsalai S, Bagheri H. Effect of the Bobath technique, conductive education and education to parents in activities of daily living in children with cerebral palsy in Iran. *Hong Kong Journal of Occupational Therapy* 2009;19(1):14-19.
81. Effgen SK, Chan L. Occurrence of gross motor behaviors and attainment of motor objectives in children with cerebral palsy participating in conductive education. *Physiotherapy Theory & Practice* 2010;26(1):22-39.
82. Heal LW. Evaluation of an integrated approach to the management of cerebral palsy. *Except Child* 1974;40(6):452-453.
83. Liang S, Zhao Y, Xu YP, Liu HT, Zhang SM, Wang LP, et al. The application of conductive education approach in walk training of cerebral palsy. *Chinese Journal of Clinical Rehabilitation* 2002;6(23):3624.
84. Liberty K. Developmental gains in early intervention based on conductive education by young children with motor disorders. *Int J Rehabil Res* 2004;27(1):17-25.
85. Odman P, Oberg B. Effectiveness of intensive training for children with cerebral palsy--a comparison between child and youth rehabilitation and conductive education. *J Rehabil Med* 2005;37(4):263-270.
86. Odman PE, Oberg BE. Effectiveness and expectations of intensive training: a comparison between child and youth rehabilitation and conductive education. *Disabil Rehabil* 2006;28(9):561-570.
87. Oshea R, Pidcoe P, Molnar G, Vance J, Oria T. Influences of conductive education on movement in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2012;54:51-52.

88. Reddihough DS, King J, Coleman G, Catanese T. Efficacy of programmes based on Conductive Education for young children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 1998;40(11):763-770.
89. Stiller C, Marcoux BC, Olson RE. The effect of conductive education, intensive therapy, and special education services on motor skills in children with cerebral palsy. *Phys Occup Ther Pediatr* 2003;23(3):31-50.
90. Jackson M, Dando F. An evaluation of the Delacato method for the facilitation of reading behaviour. *Exceptional Child* 1976;23(2):113-118.
91. O'Donnell PA, Eisenson J. Delacato training for reading achievement and visual-motor integration. *J Learn Disabil* 1969;2(9):441-447.
92. Savage D, Kroeger M, Chapman D. NARC's "patterning" study described. *Academic Therapy* 1973;9(1):71-76.
93. Stone M, Pielstick N. Effectiveness of Delacato treatment with kindergarten children. *Psychol Sch* 1969;6(1):63-68.
94. Taylor RG, Jr., Nolde S. Correlative study between reading, laterality, mobility, and binocularity. *Except Child* 1969;35(8):627-631.
95. Aris B. The Kozijavkin method. *Lancet* 2004;364(9449):1927-1928.
96. Drewes E, Driscoll M, Blyum L, Vincentz D. The Effects of a Home-Based Connective Tissue Targeting Therapy on Hip Development in Children With Cerebral Palsy: Six Case Reports. *Explore: The Journal of Science & Healing* 2016;12(4):268-276.

Vedlegg

Vedlegg 1. Søkestrategier

Intensiv barnehabilitering – fem navngitte metoder:

- Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation
- The Institutes for the Achievement of Human Potential Program
- The Family Hope Center Program
- Kozijavkin metoden
- Conductive Education (Petø-metoden) – vurderes i egen publisasjon

Søkeansvarlig: Elisabet Hafstad

Søkedato: 17.11.2016

Søkeresultater: 880 treff (504 etter dublettkontroll)

Tidsskriftsartikler og annet publisert materiale

Database (versjon)	Søkestrategi	Antall søketreff
CINAHL	TI ("advanced bio-mechanical rehabilitation" OR "advanced biomechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR "intensive neuro-physiological rehabilitation" OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND ("motor function" OR habilitation OR facilitation OR "cerebral palsy" OR "motor development" OR neurodevelopment*)) OR (conductive NO (education* OR pedagog* OR promotion* OR training* OR program* OR therap* OR treatment* OR kinesiotherap*)) OR AB ("advanced bio-mechanical rehabilitation" OR "advanced biomechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR "intensive neuro-physiological rehabilitation" OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND ("motor function" OR habilitation OR facilitation OR "cerebral palsy" OR "motor development" OR neurodevelopment*)) OR (conductive NO (education* OR pedagog* OR	126

	<p>promotion* OR training* OR program* OR therap* OR treatment* OR kinesiotherap*)) OR SU ("advanced bio-mechanical rehabilitation" OR "advanced biomechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR "intensive neuro-physiological rehabilitation" OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND ("motor function" OR habilitation OR facilitation OR "cerebral palsy" OR "motor development" OR neurodevelopment*)) OR (conductive NO (education* OR pedagog* OR promotion* OR training* OR program* OR therap* OR treatment* OR kinesiotherap*)) OR (MH "Conductive Education")</p>	
Cochrane Library	<p>(advanced-bio-mechanical-rehabilitation OR advanced-biomechanical-rehabilitation OR achievement-of-human-potential OR family-hope OR intensive-neurophysiological-rehabilitation OR intensive-neuro-physiological-rehabilitation OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND (motor-function OR habilitation OR facilitation OR cerebral-palsy OR motor-development* OR neurodevelopment*)) OR (conductive NEXT (education* OR pedagog* OR promotion* OR training* OR program* OR therap* OR treatment* OR kinesiotherap*))) :ab,kw,ti [in Cochrane Reviews (Reviews)]</p> <p>(advanced-bio-mechanical-rehabilitation OR advanced-biomechanical-rehabilitation OR achievement-of-human-potential OR family-hope OR intensive-neurophysiological-rehabilitation OR intensive-neuro-physiological-rehabilitation OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND (motor-function OR habilitation OR facilitation OR cerebral-palsy OR motor-development* OR neurodevelopment*)) OR (conductive NEXT (education* OR pedagog* OR promotion* OR training* OR program* OR therap* OR treatment* OR kinesiotherap*))) [in Cochrane Reviews (Protocols), Other Reviews, Trials, Methods Studies, Technology Assessments and Economic Evaluations]</p>	42
CRD databases	<p>(advanced-bio-mechanical-rehabilitation OR advanced-biomechanical-rehabilitation OR achievement-of-human-potential OR family-hope OR intensive-neurophysiological-rehabilitation OR intensive-neuro-physiological-rehabilitation OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR</p>	12

	koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND (motor-function OR habilitation OR facilitation OR cerebral-palsy OR motor-development* OR neurodevelopment*)) OR (conductive NEXT (education* OR pedagog* OR promotion* OR training* OR program* OR therap* OR treatment* OR kinesiotherap*))	
OVID-databaser: - AMED (Allied and Complementary Medicine) 1985 to October 2016 (76 treff) - Embase 1974 to 2016 November 16 (200 treff) - Epub Ahead of Print, In-Process & Other Non-Indexed Citations, Ovid MEDLINE(R) Daily and Ovid MEDLINE(R) 1946 to Present, (124 treff) - PsycINFO 1806 to November Week 2 2016 (104 treff)	conductive education/ use amed OR (advanced bio-mechanical rehabilitation OR advanced biomechanical rehabilitation OR "achievement of human potential" OR family hope OR intensive neurophysiological rehabilitation OR intensive neuro-physiological rehabilitation OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND (motor function OR habilitation OR facilitation OR cerebral palsy OR motor development* OR neurodevelopment*)) OR (conductive ADJ (education* OR pedagog* OR promotion* OR training* OR program* OR therap* OR treatment* OR kinesiotherap*))).mp.	504
Epistemontos	[Title/Abstract] ("advanced bio mechanical rehabilitation" OR "advanced biomechanical rehabilitation" OR "advanced bio-mechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR "intensive neuro-physiological rehabilitation" OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR (peto AND ("motor function" OR habilitation OR facilitation OR "cerebral palsy" OR "motor development" OR neurodevelopment*)) OR "conductive education" OR "conductive training" OR "conductive programme" OR "conductive program" OR "conductive therapy" OR "conductive treatment" OR "conductive promotion" OR "conductive pedagogy" OR "conductive kinesiotherapy")	12
PEDro	"advanced bio mechanical rehabilitation" "advanced biomechanical rehabilitation" "advanced bio-mechanical rehabilitation" "achievement of human potential" "family hope" "intensive neurophysiological rehabilitation" "intensive neuro-physiological rehabilitation" kozijavskin kozijavkin koziavkin koziavskin kosjawkin kozyavkin kozyavskin doman delacato peto (23)	36

	"conductive education" (12) "conductive training" "conductive programme" "conductive program" "conductive therapy" "conductive treatment" (1) "conductive promotion" "conductive pedagogy" "conductive kinesiotherapy" [søkt hver for seg]	
SveMed+	("advanced bio mechanical rehabilitation" OR "advanced biomechanical rehabilitation" OR "advanced bio-mechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR "intensive neuro-physiological rehabilitation" OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR <i>kozyavskin</i> OR doman OR delacato OR peto OR petø OR petö OR ptø OR ptö OR pt-ø OR pt-ö OR "conductive education" OR "conductive training" OR "conductive programme" OR "conductive program" OR "conductive therapy" OR "conductive treatment" OR "conductive promotion" OR "conductive pedagogy" OR "conductive kinesiotherapy")	10
Web of Science	TS=("advanced bio mechanical rehabilitation" OR "advanced biomechanical rehabilitation" OR "advanced bio-mechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR "intensive neuro-physiological rehabilitation" OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR <i>kozyavskin</i> OR doman OR delacato OR (peto AND ("motor function" OR habilitation OR facilitation OR "cerebral palsy" OR "motor development" OR neurodevelopment*)) OR "conductive education" OR "conductive training" OR "conductive program*" OR "conductive therap*" OR "conductive treatment*" OR "conductive promotion" OR "conductive pedagog*" OR "conductive kinesiotherap*")	137
Funnet underveis (ikke fanget opp av søket)		1
Totalt antall søketreff:		880

Pågående studier

Database	Søkestrategi	Antall treff
Clinical Trials	<p>Søk 1: kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin</p> <p>Søk 2: (peto AND ("motor function" OR habilitation OR facilitation OR "cerebral palsy" OR "motor development" OR neurodevelopment*)) OR "conductive education" OR "conductive training" OR "conductive programme" OR "conductive program" OR "conductive therapy"</p> <p>Søk 3: "advanced biomechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR doman OR delacato</p> <p>Søk 4: "conductive treatment" OR "conductive promotion" OR "conductive pedagogy" OR "conductive kinesiotherapy"</p>	2
ICTRP	<p>("advanced bio mechanical rehabilitation" OR "advanced biomechanical rehabilitation" OR "advanced bio-mechanical rehabilitation" OR "achievement of human potential" OR "family hope" OR "intensive neurophysiological rehabilitation" OR "intensive neuro-physiological rehabilitation" OR kozijavskin OR kozijavkin OR koziavkin OR koziavskin OR kosjawkin OR kozyavkin OR kozyavskin OR doman OR delacato OR peto OR "conductive education" OR "conductive training" OR "conductive program" OR "conductive therapy" OR "conductive treatment" OR "conductive promotion" OR "conductive pedagogy" OR "conductive kinesiotherapy")</p>	3

Vedlegg 2. Ekskluderte studier

Vi ekskluderte 24 publikasjoner etter fulltekst gjennomgang. Sytten publikasjoner omhandlet Petø-metoden (73-89). Disse publikasjonene vil bli vurdert og publisert i en egen rapport. Av de resterende studiene ble fire studier ekskludert på bakgrunn av populasjon, og fem studier på bakgrunn av studiedesign (se tabell).

Studie	Eksklusjonsgrunn
<i>Institutes for the Achievement of Human Potential</i>	
Doman 1960 (65)	Studiedesign – inkluderer alle pasienter ved Childrens Clinic i løpet av studieperioden, uten kontrollgruppe
Jackson 1976 (90)	Populasjon – uten hjerneskade
O'Donnell 1976 (91)	Populasjon – uten hjerneskade
Savage 1973 (92)	Studiedesign – beskrivelse av treningsteknikker benyttet i en studie av Neman et.al
Stone 1969 (93)	Populasjon – uten hjerneskade
Tannock 1976 (57)	Studiedesign – kasustikker, samt analyse av metodene til Doman-Delacato
Taylor 1969 (94)	Populasjon – uten hjerneskade
<i>Family Hope Center</i>	
Ingen identifiserte/ekskluderte studier	
<i>Kozijavkin</i>	
Aris 2004 (95)	Studiedesign – beskrivelse av en reise til Kozijavkins senter i Ukraina, ingen tall eller statistikk
<i>Advanced Bio-Mechanical Rehabilitation</i>	
Drewes 2016 (96)	Studiedesign – beskrivelse av 6 kasus (kasustikker)

Vedlegg 3. Kjennetegn ved inkluderte studier og risiko for skjevheter

Studie	Populasjon	Intervensjon	Sammenligning	Utfall	Studiedesign	Kommentar
<i>Institutes for the Achievement of Human Potential program / Family Hope Center program</i>						
Bridgman 1985 New Zealand	12 barn med utviklingshemming	IAHP, trening ved IAHP klinikk, minimum 8 t/d, n=6	Standard behandling/undervisning, ca. 50-60% av tiden brukt i IAHP/d, n=6	<ul style="list-style-type: none"> - motoriske ferdigheter - kognisjon - språk - selvhjelp - sosialisering 	Ikke-randomisert studie	<ul style="list-style-type: none"> *få deltakere *ingne før- og ettermålinger, har kun sammendrag av resultater *forfatterne hadde ingen kontroll over tiltakenes innhold
Studien er utført i New Zealand, men forfatterne var ansatt ved Mitchell College of Advanced Education, Bathurst, NSW, Australia	Deltakerantallet ble fastsatt ut i fra hvor mange som skulle starte med IAHP-trening i det studien ble igangsatt			Tester: <ul style="list-style-type: none"> - Portage Checklist (developmental age under 30 mo) - Alpern and Boll's Developmental Profile - Bayley Mental scale of the Bayley Scales of Infant Development - Stanford Binet - Bayley Motor Scale - Diagnostic Motor Ability Test Forsøkt brukt: <ul style="list-style-type: none"> - Doman-Delacato Neurological Profile 		RoB: høy risiko for systematikk skjevheter

Studie	Populasjon	Intervensjon	Sammenligning	Utfall	Studiedesign	Kommentar
<p>von Tetzchner 2013 Norge</p> <p>Finansiering fra "the Norwegian Health Directorate and Ministry of Social Affairs and Integration"</p>	<p>RCT: 25 barn med utviklings-hemning, fra 1,5 - 14,6 år; *intervensjon: 6,4 år (1,5 - 14,6 år) *kontroll: 7,6 år (2,4 - 14,1 år)</p> <p>Retrospektiv: 9 barn med utviklings-hemning (data fra journal og intervju), 9,9 år (4,0 – 12,5 år)</p>	<p>Intervensjon: deltakere som fulgte program i regi av Institutes for the Achievement of Human Potential (IAHP) eller Family Hope Center (FHC), n=18 (10 gutter, 8 jenter).</p> <p>IAHP: teorien bak treningen er å intensivt stimulere de delene av hjernen som hevdes å være blokkert. Treningen består av halvtimes treninger som gjentas 25-30 ganger i døgnet, syv dager i uken, i ett eller flere år. Komponentene består blant annet av bevegelse av barnets lemmer («patterning»), lesing av «flash cards», bruk av en spesiell pustemaske («respiratory masking») og dietter. Bruk av hjelpemidler som rullestol eller gå-hjelpemidler tillates ikke, heller ikke bruk av medikamenter.</p> <p>FHC: basert på metodene som brukes i IAHP. Inkluderer trening i de fleste av barnets våkne timer, men inkluderer i større grad trening i dagligvaksaktiviteter og sosialisering. Det tillates i noen grad at man inkluderer elementer fra andre habiliteringsprogrammer. Barna kan delta i barnehage/skole noen timer i uka.</p>	<p>Kontroll: Standard behandling i Norge og Danmark, n=17 (9 gutter, 8 jenter).</p>	<p>Motoriske ferdigheter: *grovmotorikk (GMFM66) *håndfunksjon (QUEST) Kognisjon og språk: *Bayley Scales of Infant Development, BSID-II *Bayley Scales of Infant and Toddler Development, 3rd ed., Screening Test *Bracken Basic Concept Scale *British Picture Vocabulary Scales, BPVS *Leiter International Performance Scale – Revised *Reynell Developmental Language Scales *Wechsler Preschool Scale for Children *Wechsler Intelligence Scale for Children *Wechsler Abbreviated Scale of Intelligence Atferd: *Bayley Scales of Infant Development, BSID-II *Leiter International Performance Scale - Revised</p>	<p>*Ikke-randomisert studie (prospektiv studie), n=25 *Retrospektiv studie, n=9 (7 gutter, 2 jenter)</p>	<p>Prospektiv studie: *2-års studie *måling ved 12 og 24 mnd, men dette var ikke mulig for alle deltakerne, derfor ulikt deltakerantall ved målingene – dataene ble tidskorrigert for å gjøre de sammenlignbare *få deltakere *beskrivelse av intervensjoner synes å basere seg på litteratur, inkludert beskrivelser fra IAHP og FHC sine nettsider *lite beskrivelse av kontrolltiltak *forsøk på å inkludere en deltaker med lignende karakteristika for hver deltaker i intervensjonsgruppen *et samarbeid mellom norske og danske forskere</p> <p>RoB: høy risiko for systematiske skjevheter</p>

Studie	Populasjon	Intervensjon			Sammenligning	Utfall	Studiedesign	Kommentar
		Tiltak 1	Tiltak 2	Tiltak 3				
Sparrow 1978 USA	45 alvorlig funksjonshemmede barn	Modifisert IAHP-program	Motivasjons-behandling	Ingen behandling	Kun standard behandling ved institusjonen de bodde i. Besto av et omfattende program med vekt på interaksjon med både jevnaldrede og voksne, og skole og fritidsaktiviteter (som svømming om sommeren). Samvær med fosterbesteforeldre 2 t/d.	- IAHP profil - intelligens - motorisk utvikling - språkutvikling - atferd (følelser, sosialt, maladaptiv) Tester: - IAHP Developmental Profile - Cattell Infant Intelligence Scale / Stanford Binet Form LM - the Behavior Rating Inventory for the Retarded (BRIR) - an observational schedule	Matching mht kronologisk alder, mental alder, IQ, kjønn, lengde av institusjonsopphold, og objektiv skåre på «the Preinstitutional Social Deprivation Scale»	*n=15 (11 gutter, 4 jenter) i hver av gruppene RoB: høy risiko for systematiske skjevheter
«Supported by the Gunnar Dybwad Award of the National Association for Retarded Citizens and by research grant HD-03008 from the National Institute of Child Health and Human Development»	Inklusjons-kriterier: *IQ lavere enn 55, 35 og 20 *langtids-opphold på institusjon *uten oppgaver i institusjonen el.l	Sju komponenter: 1. Patterning (utført av 3-5 voksne, rytmisk manipulering av lemmer og hode) 2. kravling og kryping 3. reseptiv stimulering (visuell-, taktil-, hørsel-stimulering) 4. ekspressiv aktivitet (utførende aktivitet, mål å utvikle manuell og taktil kompetanse) 5. masking (for å gjeninnpuste CO ₂) 6. henging/svinging fra en stang, korsarmet 7. gravitasjon/anti-gravitasjon (rulle, salto, henge opp/ned)	Fire forsterkningsmål: 1. generell positiv forsterking 2. knyttet til spesifikke aktiviteter 3. utforskning og læring om selvet					

Vedlegg 4. Liste over pågående studier

Vi identifiserte én relevant pågående studie:

NCT02166541.

Evaluation of INRS With BCSK in Children With Spastic Bilateral Cerebral Palsy: a Randomized Controlled Trial.

Abstract: Recruiting

Purpose: A randomized control trial investigating "Biomechanical Correction of the Spine according to Kozyavkin" (BCSK) which is a part of the treatment concept "Intensive Neurophysiological Rehabilitation System" (INRS). BCSK is used with the aims to reduce muscle tone and improve gross and fine motor function in children with Spastic Bilateral Cerebral Palsy.

Verified February 2015 by Karolinska Institutet

Vedlegg 5. Resultattabeller – inkluderte studier

Her har vi presentert resultatene for våre inkluderte studier om Institutes for the Achievement of Human Potential program og Family Hope Center program. De inkluderte studiene er Bridgman og medarbeidere (8), Sparrow og medarbeidere (9) og von Tetzchner og medarbeidere (10). I tabellene er det angitt verdi som er oppgitt i studiene (gjennomsnitt eller endringsskår), hva verdien representerer (aldersutvikling i måneder eller skåre fra tester), hvilke tester som er benyttet og om det er statistisk signifikant forskjell mellom gruppene (markert med *). Beskrivelse av studiene og tolkning av resultatene finnes i kapittelet «Effekter av tiltak».

Tabell 1, vedlegg 5. Resultater fra studien av Bridgman og medarbeidere – på våre primære og sekundære utfallsmål

Primære utfallsmål# - Måletidspunkt	IAHP (gjennomsnitt, målt som aldersutvikling i måneder)	Standard behandling (gjennomsnitt, målt som aldersutvikling i måneder)
Grovmotorikk		
- Baseline	40,5	40,6
- 3 mnd	46,6	44,8
- 6 mnd	47,2	46,2
- 10 mnd	49,1	48,3
Finmotorikk	Ingen data	Ingen data
Kognitiv funksjon		
- Baseline	35,8	32,6
- 3 mnd	37,6	32,8
- 6 mnd	38,3	34,6
- 10 mnd	39,3	35,3
Livskvalitet	Ingen data	Ingen data
Sikkerhet	Ingen data	Ingen data
Sekundære utfallsmål# - måletidspunkt		
Dagliglivsaktiviteter (self-help)*		
- Baseline	36,3	43,5
- 3 mnd	43,6	45,8

- 6 mnd	45,0	46,2
- 10 mnd	45,6	47,1
Kommunikasjon/språk*		
- Baseline	33,4	33,4
- 3 mnd	39,1	33,6
- 6 mnd	39,1	34,4
- 10 mnd	41,6	36,1
Atferd	Ingen data	Ingen data
Sosial deltakelse		
- Baseline	38,4	33,2
- 3 mnd	40,5	33,3
- 6 mnd	42,1	36,2
- 10 mnd	42,6	36,7
Skoleferdigheter	Ingen data	Ingen data

= våre primære og sekundære utfallsmål som beskrevet i metodekapittelet (inklusionskriterier), *=forskjell mellom grupper

Tabell 2, vedlegg 5: Resultater fra studien av Sparrow og medarbeidere – på våre primære og sekundære utfallsmål

Primære utfallsmål# - Måletidspunkt	Modifisert IAHP program (gjennomsnitt)	Motivasjon (gjennomsnitt)	Standard behandling (gjennomsnitt)
Grovmotorikk (physical skills, BRIR)			
- Baseline	2,86	2,76	2,63
- Studieslutt	3,35	2,97	2,82
Finmotorikk	Ingen data	Ingen data	Ingen data
Kognitiv funksjon (IQ, Stanford Binet)			
- Baseline	17,53	15,47	16,20
- Studieslutt	15,87	15,27	14,53
Livskvalitet	Ingen data	Ingen data	Ingen data
Sikkerhet	Ingen data	Ingen data	Ingen data
Sekundære utfallsmål# - Måletidspunkt			
Dagliglivsaktivitetet (self-help, BRIR)			
- Baseline	2,70	2,51	2,52
- Studieslutt	2,81	2,58	2,71
Kommunikasjon (BRIR)			
- Baseline	1,44	1,60	1,52
- Studieslutt	1,57	1,61	1,50
Atferd (positive affect, observasjon)			
- Baseline	0,25	0,26	0,24
- Studieslutt	0,35	0,23	0,14
Sosial deltakelse (social behavior, BRIR)			
- Baseline	2,82	2,58	2,51
- Studieslutt	2,80	2,67	2,38
Skoleferdigheter	Ingen data	Ingen data	Ingen data

= våre primære og sekundære utfallsmål som beskrevet i metodekapittelet (inklusionskriterier), BRIR=the Behavior Rating Inventory for the Retarded, observasjon=an observational schedule, benevnelser og skalaer for de ulike testene er ikke oppgitt.

Tabell 3, vedlegg 5: Resultater fra studien av von Tetzchner og medarbeidere – på våre primære og sekundære utfallsmål

Primære utfallsmål# - Måletidspunkt	IAHP / FHC gj.snitt (standardavvik), endringsskår (standardavvik)	Standard behandling gj.snitt (standardavvik), endringsskår (standardavvik)
Grovmotorikk (gross motor, GMFM66)		
- Baseline	42,5 (27,5)	41,8 (22,6)
- Endring etter 1 år (fra baseline)	3,6 (4,9)	3,3 (3,1)
- Endring etter 2 år (fra baseline)	4,5 (6,5)	6,3 (3,9)
Finmotorikk (QUEST)		
- Baseline	60,7 (38,4)	47,6 (42,8)
- Endring etter 1 år (fra baseline)	7,3 (9,8)*	-1,2 (5,5)
- Endring etter 2 år (fra baseline)	0,8 (11,3)	0,7 (9,4)
Kognitiv funksjon (age equivalent score)		
- Baseline	26,6 (26,1)	33,1 (31,7)
- Endring etter 1 år (fra baseline)	2,3 (5,1)	2,9 (9,6)
- Endring etter 2 år (fra baseline)	7,3 (8,9)	11,4 (15,6)
Livskvalitet	Ingen data	Ingen data
Sikkerhet/skade	Ingen data	Ingen data
Sekundære utfallsmål# - måletidspunkt		
Dagliglivsaktiviteter	Ingen data	Ingen data
Kommunikasjon/språk (receptive language, age equivalent score)		
- Baseline	22,8 (17,0)	32,1 (33,1)
- Endring etter 1 år (fra baseline)	2,7 (6,9)	5,9 (5,2)
- Endring etter 2 år (fra baseline)	7,6 (9,8)	17,1 (19,9)
Kommunikasjon/språk (expressive language, age equivalent score)		
- Baseline	27,4 (29,0)	37,0 (38,8)
- Endring etter 1 år (fra baseline)	2,9 (6,9)	-0,4 (7,8)
- Endring etter 2 år (fra baseline)	4,3 (8,1)	4,2 (13,1)
Atferd (Bayley II behavior)		
- Baseline	67,8 (21,9)	79,5 (12,5)
- Endring etter 1 år (fra baseline)	4,8 (9,7)	10,8 (9,5)
- Endring etter 2 år (fra baseline)	6,8 (10,1)	7,2 (12,0)
Sosial deltakelse (Leiter behavior: social/cognitive)		
- Baseline	37,1 (15,3)	44,7 (18,4)
- Endring etter 1 år (fra baseline)	3,4 (5,0)	11,0 (5,9)*
- Endring etter 2 år (fra baseline)	1,5 (14,3)	14,5 (6,0)
Skoleferdigheter	Ingen data	Ingen data

= våre primære og sekundære utfallsmål som beskrevet i metodekapittelet (inkludjonskriterier), * = statistisk signifikant forskjell mellom gruppene ($p < 0,05$), GMFM66=Gross Motor Function Measure, QUEST=Quality of Upper Extremity Skills test, benevnelse og skalaer for de ulike testene er ikke oppgitt i studien. For testen GMFM er høyere poengsum, knyttet til bedre grovmotoriske ferdigheter (13).

Vedlegg 6. Gradering av kvaliteten av dokumentasjonen med GRADE

Question: Institutes for the Achievement of Human Potential program / Family Hope Center program compared to standard care for brain injury in children

Quality assessment							No of patients		Effect		Quality	Importance
No of studies	Study design	Risk of bias	Inconsistency	Indirectness	Imprecision	Other considerations	IAHP/FHC	standard care	Relative (95% CI)	Absolute (95% CI)		
Gross motor function (follow up: range 10 months to 24 months)												
3	observational studies	not serious	not serious	not serious	serious	none			-		⊕○○○ VERY LOW	
Fine motor function (follow up: mean 24 months)												
1	observational studies	not serious	not serious	not serious	serious	none			-		⊕○○○ VERY LOW	
Cognition (follow up: range 10 months to 24 months)												
3	observational studies	not serious	not serious	not serious	serious	none			-		⊕○○○ VERY LOW	

CI: Confidence interval

Vedlegg 7. Identifisering av relevante etiske og moralske spørsmål

Nedenfor har vi listet opp hvilke relevante etisk og moralske spørsmål som kan knyttes til de ulike berørte parter.

Pasientperspektiv

Vi tok utgangspunkt i spørsmål 3 og 14 i sjekkliste for moralsk relevante spørsmål for å belyse pasientperspektivet:

- Utfordres pasientenes autonomi, deres integritet, verdighet eller deres (menneske)rettigheter ved innføring eller bruk av helsetiltaket?
- Kan helsetiltaket skade pasienten?

Faggruppen ønsket også belysning av følgende:

- Hvor stor inngripen i barnets miljø/oppvekstforhold har tiltakene?
- Opplevelse av stress og eventuell håndtering av dette. Hvordan håndteres barnets smerter/gråt/ubehag under treningen?

Familieperspektiv

Vi tok utgangspunkt i spørsmål 17 i sjekkliste for moralsk relevante spørsmål for å belyse foreldreperspektivet:

- Hvilke interesser har de som bruker helsetiltaket?

Faggruppen og brukere ønsket også belysning av følgende:

- Familiens selvråderett

Helsetjenesteperspektiv og barnehage-/skoleperspektiv

Vi tok utgangspunkt i spørsmål 5, 11, 12 og 13 i sjekkliste for moralsk relevante spørsmål for å belyse barnehage-/skoleperspektivet:

- Utfordrer helsetiltaket sosiale verdier, ordninger eller institusjoner?
- Utfordrer eller forandrer helsetiltaket på noen måte forholdet mellom helsepersonell og pasient?
- Hvordan påvirker implementering og bruk av helsetiltaket fordelingen av helsetjenester?
- Hvordan bidrar helsetiltaket til å styrke eller svekke profesjonell selvbestemmelse?

Faggruppen og brukere ønsket også belysning av følgende:

- Press fra foreldrene om å gjennomføre trening i tråd med tiltakene?
- Hvordan håndtere dilemmaer som fagpersoner opplever knyttet til å trene en metode som ikke inngår i den ordinære helsetjenesten?

Tilbyderperspektiv

Vi tok utgangspunkt i spørsmål 1, 18 og 19 i sjekkliste for moralsk relevante spørsmål for å belyse tilbyderperspektivet:

- Hva er problemet som helsetiltaket skal løse? Hvem definerer problemet og løsningsalternativer?
- Hvilke interesser har produsentene av helsetiltaket?
- Hva er karakteristisk for helsetiltaket som vurderes?

Faggruppen og brukere ønsket også belysning av følgende:

- Private institusjoners ønske om "å selge" tjenestene sine?

Samfunnsperspektiv

Vi tok utgangspunkt i spørsmål 4 i sjekkliste for moralsk relevante spørsmål for å belyse samfunnsperspektivet:

- Følger det moralske forpliktelser med å innføre og bruke helsetiltaket?

Faggruppen og brukere ønsket også belysning av følgende:

- Skal samfunnet følge foreldrenes ønsker om finansiering av ikke-dokumentert behandling?

Vedlegg 8. Sjekkliste for etiske og moralske spørsmål

GENERELLE MORALSKE SPØRSMÅL

1. Hva er problemet som helsetiltaket skal løse? Hvem definerer problemet og løsningsalternativer? (Beskriv også alternativene.)
2. Hva er de moralsk relevante konsekvensene av å ta i bruk helsetiltaket? (Inkluder risiko, usikkerhet og områder for uvitenhet som kan knyttes til teknologien.)
3. Utfordrer innføring eller bruk av helsetiltaket pasientenes autonomi, deres integritet, verdighet eller deres (menneske)rettigheter?
4. Følger det moralske forpliktelser med å innføre og bruke helsetiltaket?
5. Utfordrer helsetiltaket sosiale verdier, ordninger eller institusjoner?
6. Forandrer utstrakt bruk av helsetiltaket vår oppfatning av bestemte personer eller grupper (for eksempel personer med bestemte diagnoser)?
7. Virker helsetiltaket støtende i forhold til religiøse, sosiale eller kulturelle overbevisninger?
8. Utfordrer helsetiltaket relevante lover?
9. Hvordan forholder det aktuelle helsetiltaket seg til generelle kritikker av moderne medisin (for eksempel medikalisering)?
10. Finnes det beslektede tiltak som har vist seg å være moralsk kontroversielle?
11. Utfordrer eller forandrer helsetiltaket på noen måte forholdet mellom helsepersonell og pasient?
12. Hvordan påvirker implementering og bruk av helsetiltaket fordelingen av helsetjenester?
13. Hvordan bidrar helsetiltaket til å styrke eller svekke profesjonell selvbestemmelse?
14. Kan helsetiltaket skade pasienten?

SPØRSMÅL KNYTTET TIL ULIKE INTERESSENER

15. Hvilke pasientgrupper har nytte av helsetiltaket?
16. Er tredjeparter involvert, og hva er i så fall deres interesser?
17. Hvilke interesser har de som bruker helsetiltaket?
18. Hvilke interesser har produsentene av helsetiltaket? (Industri, universitet)

SPØRSMÅL KNYTTET TIL HELSETILTAKET

19. Er moralske utfordringer knyttet til deler av helsetiltaket relevante for helsetiltaket som helhet?
20. Hva er karakteristisk for helsetiltaket som vurderes?
21. Har helsetiltakets symbolske verdi noen moralsk relevans?

SPØRSMÅL OM MORALSKE ASPEKTER VED METODOLOGISKE VALG

22. Er det moralsk relevante spørsmål knyttet til valg av endepunkter i den metodiske vurderingen?
23. Er det moralsk relevante spørsmål knyttet til inklusjonen av studier i metodevurderingen?
24. Er brukerne i studiene representative for dem som vil bruke helsetiltaket i klinisk praksis?
25. Er det moralsk relevante aspekter knyttet til hvordan kunnskapen generaliseres?
26. Finnes det forskningsetiske utfordringer knyttet til metodevurderingen?

SPØRSMÅL KNYTTET TIL Å GJENNOMFØRE EN METODEVURDERING (HTA)

27. Hva er grunnen til at dette helsetiltaket vurderes (eventuelt i forhold til andre tiltak)?
28. Er metodevurderingen egnet til å belyse alle relevante aspekter ved helsetiltaket?
29. Hvilke interesser har de som deltar i vurderingen?
30. På hvilket stadium i utviklingen av helsetiltaket blir metodevurderingen gjennomført?
31. Finnes det beslektede tiltak som ikke er vurdert?
32. Hva er metodevurderingens moralske konsekvenser?

Utgitt av Folkehelseinstituttet
Mars 2017
Postboks 4404 Nydalen
NO-0403 Oslo
Telefon: 21 07 70 00
Rapporten kan lastes ned gratis fra
Folkehelseinstituttets nettsider www.fhi.no