

SAMMENDRAG

Bakgrunn: Pustebesvær er et vanlig og belastende symptom hos mange pasienter med alvorlig langtkommen sykdom. På grunn av symptomets subjektive natur trenger vi verktøy for å kartlegge pasientens egenopplevelse – pasientrapporterte resultatmål (PROMs).

Hensikt: Å identifisere tilgjengelige PROMs for å kartlegge pustebesvær hos palliative pasienter og oppsummere deres måleegenskaper. Kartleggingsverktøyene måtte inneholde dimensjoner for både pustebesvær og angst for å bli vurdert.

Metode: Vi gjennomførte et systematisk litteratursøk i mars 2014, som ble oppdatert i desember

2015. Uavhengig av hverandre gikk to personer gjennom søkeresultatene, valgte ut relevante studier og kvalitetsvurderte disse ved hjelp av COSMIN-sjekklisten. Måleegenskapene til de inkluderte kartleggingsverktøyene ble oppsummert i en kvalitativ syntese.

Hovedresultat: Vi screenet 1948 referanser for relevans og inkluderte 15 studier som evaluerte måleegenskaper ved fire ulike PROMs: CDS, SRI, DMQ og en respiratorisk symptomsjekkliste. Ingen av de inkluderte kartleggingsverktøyene er direkte validert for bruk i en palliativ setting, men de viser jevnt over lovende måleegenskaper i andre relevante settinger. Vi

mangler fortsatt data om viktige måleegenskaper for alle de tilgjengelige kartleggingsverktøyene, og foreløpig er det bare SRI som er tilgjengelig i en norsk validert versjon. Videre forskning er nødvendig for å oversette og validere kartleggingsverktøyene for bruk i lindrende behandling i Norge.

Konklusjon: Flere PROMs for pustebesvær og angst viser lovende egenskaper, men videre forskning er nødvendig før vi kan trekke sikre konklusjoner og før kartleggingsverktøyene er tilgjengelige for bruk i en palliativ setting i Norge. Vår gjennomgang tyder på at bare SRI er oversatt til og validert i en norsk versjon.

ENGLISH SUMMARY

Instruments for measurement of breathlessness in palliative care

Background: Breathlessness is a common and distressing symptom for many patients with advanced diseases. Due to the subjective nature of breathlessness, patient-reported outcome measures (PROMs) are required to measure the patient's own experience.

Objective: To identify PROMs used to measure breathlessness in palliative care and to synthesise their measurement properties. Instruments had to include dimensions for breathlessness and anxiety to be considered.

Method: A systematic literature search was performed in March

2014 and updated in December 2015. Two reviewers independently screened all references for relevance and critically appraised included studies with the COSMIN-checklist. We performed a best evidence synthesis to summarise the measurement properties of each included PROM.

Results: We screened 1948 references for relevance, and included 15 studies evaluating the measurement properties of four different PROMs: CDS, DMQ, SRI and a respiratory symptom checklist. None of the included instruments were validated directly for use in a palliative setting, but they generally showed promising measurement properties in other relevant settings. We still lack data on important measurement properties for

all the available instruments, and currently, only SRI seems to be available in a Norwegian validated version. Further research is therefore needed to translate and validate the PROMs for use in palliative care in Norway.

Conclusion: The identified PROMs for breathlessness and anxiety show promising measurement properties, but further research is needed before we can draw firm conclusions and before the instruments are available for use in palliative care in Norway. Our review suggests that only SRI is available in a translated and validated Norwegian version.

Keywords: Palliative care, dyspnoea, review, questionnaires, psychometrics

» Kartleggingsverktøy for pustebesvær hos palliative pasienter

Forfattere: Kjersti Solvåg, Kristine Berg Titlestad og Kjetil Gundro Brurberg

NØKKELOORD

- Palliasjon
- Dyspné
- Oversikt
- Spørreskjema
- Psykometri

INTRODUKSJON

Dyspné eller pustebesvær er et komplekst og sammensatt symptom hos mange pasienter med langtkommen alvorlig sykdom (1, 2). Forskning har vist at 94 prosent av pasienter med kronisk lungesykdom og 78 prosent med lungekreft lider av pustebesvær siste leveår (3), og at pustebesvær kan assosieres med dårlig livskvalitet, angst, nedsatt funksjonsevne og reduserte leveutsikter (1, 2).

Pasientens opplevelse av pustebesvær samsvarer ofte ikke med sykdommens alvorlighetsgrad og objektive mål (4, 5). I lindrende behandling er systematisk bruk av verktøy som kartlegger pasientenes egenopplevelse, derfor viktig for å identifisere symptomer, innhente informasjon om sykdomsutvikling og vurdere effekt av tiltak

(6). Data som er basert på slike kartleggingsverktøy, omtales gjerne som pasientrapporterte resultatmål (PROMs).

Før vi startet arbeidet med denne oversikten gjennomførte vi et orienterende litteratursøk for å se om det allerede fantes oversikter som besvarte våre spørsmål. Søket resulterte i to relevante treff (7, 8). Begge oversiktene er basert på ti år gamle litteratursøk, og begge viste at det var nødvendig med videre evaluering av hvilke PROMs som egner seg for kartlegging av pustebesvær i en palliativ setting (7, 8). Hensikten med denne systematiske oversikten har vært å oppsummere hvilke PROMs som er tilgjengelige for kartlegging av pustebesvær hos palliative pasienter, og hvilke måleegenskaper disse kartleggingsverktøyene har. Kartleggingsverktøy måtte inneholde dimensjoner for både pustebesvær og angst for å bli vurdert for inklusjon.

METODE

Vi har benyttet et metodisk rammeverk kalt COnsensus-based Standards for the selection of health Measurement Instruments (COSMIN). Rammeverket ble utarbeidet i en

internasjonal konsensusprosess og gir spesifikke anbefalinger om terminologi, taksonomi og metodebruk i studier som omhandler PROMs og deres måleegenskaper (9–11).

Litteratursøk

Vi søkte systematisk etter litteratur i databasene MEDLINE (1946–), Embase (1974–), PsycINFO (1806–), AMED (1985–), CINAHL (1982–), Cochrane

Hva tilfører artikkelen?

Pasientens opplevelse av pustebesvær samsvarer ofte ikke med sykdommens alvorlighetsgrad og objektive mål. Studien viser at vi trenger verktøy for å kartlegge egenopplevelsen til palliative pasienter med pustebesvær.

Mer om forfatterne:

Kjersti Solvåg, spesial-/fagutviklingssykepleier, Sunniva senter for lindrende behandling, Haraldsplass Diakonale Sykehus. Kristine Berg Titlestad, høgskolelektor, Avdeling for helse- og sosialfag, HiB. Kjetil Gundro Brurberg, førsteamanuensis, Senter for kunnskapsbasert praksis, HiB og forsker, Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten. Kontaktperson: kjerstisolvaag@hotmail.com.

Tabell 1: Inklusjons- og eksklusjonskriterier		
	Inklusjonskriterier	Eksklusjonskriterier
Populasjon	Voksne (≥18 år) palliative pasienter med pustebesvær	Pasienter med akutt oppstått pustebesvær, sykdommer med mulighet for helbredelse
Setting	Inneliggende på sykehus, i dagbehandling, poliklinisk eller hjemmebaserte tjenester	
Kartleggings-verktøy	PROM for kartlegging av pustebesvær, og som minimum inkluderer dimensjoner for pustebesvær og angst	Generiske PROMs. Kartleggingsverktøy utviklet for bruk i forbindelse med trening eller i akuttsituasjoner
Måleegenskaper	Innen kategoriene reliabilitet, validitet, responsivitet	

PROM (pasientrapporterte resultatmål)

Library og SveMed+. Søkestrategiene besto av emneord og tekstord tilpasset hver database for kategoriene 1) pustebesvær, 2) måleegenskaper og 3) palliative pasienter, kreft eller kronisk obstruktiv lungesykdom (kols). Vi gjennomførte siteringssøk for oversiktene til Bausewein mfl. (7) og Dorman mfl. (8) i Science Citation Index og gjennomgikk referanselister til aktuelle publikasjoner. Søkene ble gjennomført uten begrensninger i språk og tid og ble fagfellevurdert av spesialbibliotekar. Litteratursøkene ble gjennomført i mars 2014 og oppdatert i desember 2015. Fullstendige søkestrategier er tilgjengelige i masteroppgave (12).

Utvelgelse

Titler og sammendrag ble vurdert for inklusjon på bakgrunn av forhåndsbestemte kriterier (tabell 1). Antatt relevante artikler ble innhentet i fulltekst og vurdert for inklusjon. Alle trinnene i seleksjonsprosessen ble gjennomført av to personer (KS/KGB) uavhengig av hverandre,

og uenighet ble løst ved diskusjon.

Måleegenskaper

Før man tar i bruk nye kartleggingsverktøy er det viktig å forsikre seg om at verktøyene har gode måleegenskaper, det vil si om de måler det de er tenkt å måle, og om vi kan stole på resultatene (11). I COSMIN-taksonomien deles måleegenskapene inn i tre hovedkategorier: reliabilitet, validitet og responsivitet. *Reliabilitet* forteller om feilkildene er tilstrekkelig små og om resultatene er tilstrekkelig stabile til at vi kan stole på målingene. I COSMIN-taksonomien består reliabilitet av tre underkategorier, som kalles intern konsistens, reliabilitet (her test-retest-reliabilitet) og målefeil. *Validitet* beskriver hvorvidt et kartleggingsverktøy måler de egenskapene det har til hensikt å måle, for eksempel om personer som skårer ulikt på en depresjonsskala, også skårer forskjellig på andre tilsvarende skalaer. COSMIN-taksonomien definerer tre underordnede vali-

ditetsegenskaper (innholdsvaliditet, kriterievaliditet og begrepsvaliditet), der begrepsvaliditeten deles inn i ytterligere tre kategorier kalt strukturell validitet, hypotesetesting og tverrkulturell validitet. *Responsivitet* er et mål på om kartleggingsverktøyet evner å fange opp viktige endringer over tid (10).

Vurdering av metodisk kvalitet

Vi vurderte metodisk kvalitet og risiko for systematiske feil i tråd med sjekklisten fra COSMIN (13, 14). Sjekklisten består av ulike skjema som fylles ut for å vurdere om man kan stole på måleegenskapene som rapporteres i en valideringsstudie. Hver valideringsstudie måler gjerne et begrenset antall måleegenskaper, og man fyller bare ut skjema med relevans opp mot måleegenskapene som studien søker å evaluere. Studienes kvalitet vurderes som utmerket, god, rimelig eller svak. Alle kvalitetsvurderinger ble gjennomført av to personer (KS/KBT), uavhengig av hverandre. Uenighet ble løst ved diskusjon eller ved å involvere en tredje person (KGB).

Dataekstraksjon og kategorisering av måleegenskaper

Én person (KS) gjennomgikk alle inkluderte studier og registrerte bakgrunnsinformasjon om studien, deltakere, kartleggingsverktøy, måleegenskaper, metodisk kvalitet og resultater ved hjelp av et dataekstraksjons-skjema. Dataekstraksjonen ble deretter kvalitetssikret av en annen (KGB). For hver studie vurderte vi måleegenskapene til det aktuelle kartleggingsverktøyet som positive, uavklarte eller negative opp mot et sett med forhåndsdefinerte kriterier

(vedlegg I, se nettversjon).

Samlet dokumentasjon om kartleggingsverktøyenes egenskaper

Vi oppsummerte den samlede dokumentasjonen om måleegenskapene til de ulike kartleggingsverktøyene i en kvalitativ syntese som tar hensyn til metodisk kvalitet, måleegenskaper og grad av konsistens. Kvaliteten på dokumentasjonen vurderes som høy, moderat, lav, motstridende eller usikker, etter kriteriene i vedlegg II (se nettversjon).

RESULTATER

Vi identifiserte 1948 referanser, og vi endte opp med å inkludere 15 studier (15–29) (figur 1). Tabell 2 gir en oversikt over inkluderte studier.

Vi identifiserte fire relevante kartleggingsverktøy: Cancer Dyspnea Scale (CDS), Severe Respiratory Insufficiency (SRI) Questionnaire, Dyspnea Management Questionnaire (DMQ) og Respiratory Symptom Checklist (RSC). Vi har oppsummert karakteristika ved kartleggingsverktøyene i tabell 3. Tabell 4 (se nettversjon) oppsummerer vår vurdering av metodisk kvalitet og risiko for skjvhet samt måleegenskapene i de inkluderte studiene. En mer detaljert oversikt over ulike måleegenskaper er tilgjengelig i masteroppgave (12). Den kvalitative syntesen som oppsummerer resultater på tvers av alle inkluderte studier, er presentert i tabell 5. I det følgende oppsummerer vi hovedresultatene for hvert av de fire kartleggingsverktøyene.

Cancer Dyspnea Scale (CDS)

CDS ble utviklet i Japan for pasienter med kreft og måler aspekt ved pustebesvær (15). Utvikling og validering er

beskrevet i fire publikasjoner (15–18) (tabell 2).

Både representanter for pasientgruppen og fageksperter var involvert i utviklingen av CDS, og kartleggingsverktøyet ble pilottestet i målgruppen (15). Samlet sett vurderer vi at innholdsvaliditeten til CDS trolig er svært god (tabell 5).

Tre studier (15, 17, 18) bekreftet at CDS har en tredelt faktorstruktur (tabell 3), men vi har ikke tilstrekkelig med

å måle helserelatert livskvalitet hos pasienter som behandles med langtidsmekanisk ventilasjon (LTMV) på grunn av kronisk respirasjonssvikt. Respirasjonssvikten skyldes ulike underliggende sykdommer (19). Syv publikasjoner (19–25) har beskrevet utvikling og validering av kartleggingsverktøyet (tabell 2). To publikasjoner (19, 22) har delvis overlappende utvalg, og data for strukturell validitet og intern konsistens

 Pustebesvær gir dårlig livskvalitet, angst, nedsatt funksjonsevne og reduserte leveutsikter.

data til å vurdere kartleggingsverktøyet strukturelle validitet (tabell 5).

For hypotesetesting har vi vektlagt sammenlikningene mellom CDS og Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS), Borg skala og visuell analog skala (VAS-dyspné). Resultatet for hypotesetesting var negativt i to (16, 18) og positivt i to studier (15, 17) (tabell 4, se nettversjon). Samlet sett er altså resultatene motstridende, noe som gjør det vanskelig å konkludere entydig (tabell 5).

Den interne konsistensen til CDS ble rapportert å være positiv i tre studier (15, 17, 18) (tabell 4, se nettversjon), og samlet sett vurderer vi at internkonsistensen til CDS trolig er svært god (tabell 5). Resultatet for test-retest-reliabilitet var negativt (15) (tabell 4, se nettversjon), men her har vi begrenset tillit til dokumentasjonen som foreligger (tabell 5).

Severe Respiratory Insufficiency (SRI) Questionnaire

SRI ble utviklet i Tyskland for

er derfor hentet fra studien til Windisch mfl. (22).

SRI er utviklet basert på sosiale, psykologiske og fysiske helseomneger, og både pasienter og fageksperter var involvert (19). Norsk versjon av SRI ble pilottestet blant brukere av LTMV (25), og innholdsvaliditeten er trolig svært god (tabell 5).

Faktorstrukturen er evaluert i tre studier (21–23), som alle fant at de opprinnelige syv dimensjonene besto av flere faktorer. To studier (22, 23) viste at faktorene innenfor én dimensjon samvarierte, og forfatterne valgte derfor å beholde den opprinnelige strukturen med syv dimensjoner. Én studie (21) fant 13 faktorer. Alle de tre studiene viste positive egenskaper for strukturell validitet (tabell 4, se nettversjon). Samlet sett er det allikevel usikkerhet knyttet til den strukturelle validiteten (tabell 5), noe som først og fremst skyldes metodiske begrensninger i studiene der dette er evaluert.

For hypotesetesting valgte vi å vektlegge sammenlikningene

Tabell 2: Karakteristika ved inkluderte studier

PROM	Publikasjoner	Utvalg	N	Land	Setting
CDS	Tanaka et al. (15)	Lungekreft	166	Japan	Poliklinisk Sykehus
	Tanaka et al. (16)	Lungekreft	171	Japan	Poliklinisk
	Henoch et al. (17)	Lungekreft	99	Sverige	Poliklinisk
	Uronis et al. (18)	Lungekreft	109	USA, UK, AUS	Sykehus*
SRI	Windisch et al. (19)	Respirasjonssvikt. LTMV. Ulike diagnoser	226	Tyskland	Sykehus
	Duierveman et al. (20)	Respirasjonssvikt. Kols	72	Nederland	Ikke oppgitt
	Lopez-Campos et al. (21)	LTMV. Ulike diagnoser	115	Spania	Poliklinisk
	Windisch et al. (22)	Respirasjonssvikt. LTMV. Kols	162	Tyskland	Sykehus
	Ghosh et al. (23)	Respirasjonssvikt. LTMV. Ulike diagnoser	152	England	Poliklinisk
	Struik et al. (24)	Respirasjonssvikt. Kols	170	Nederland	Sykehus
	Markussen et al. (25)	Respirasjonssvikt. LTMV. Ulike diagnoser	127	Norge	Hjemmeboende
DMQ-30	Norweg et al. (26)	Kols og astma	85	USA	Ikke oppgitt
DMQ-56	Norweg et al. (27)	Kols	107	USA	Ikke oppgitt
DMQ-CAT	Norweg et al. (28)	Kols	292	USA	Poliklinisk
RSC	Han et al. (29)	Hjerte-/lungesykdommer	396	Kina	Sykehus*

PROM (pasientrapporterte resultatmål); CDS (Cancer Dyspnea Scale); SRI (Severe Respiratory Insufficiency Questionnaire); DMQ (Dyspnea Management Questionnaire); CAT (Computer Adaptive Test); RSC (Respiratory Symptom Checklist); LTMV (langtidsmekanisk ventilasjon); kols (kronisk obstruktiv lungesykdom); USA (United States of America); UK (United Kingdom); AUS (Australia); * (uklart om inneliggende, poliklinisk eller begge deler).

mellom SRI og Short Form Health Survey (SF-36), Chronic Respiratory Disease Questionnaire (CRQ), HADS og Medical Research Council Dyspnea Scale (MRC) (19–21, 23–25). Generelt var det sterkest samvariasjon mellom SRI-dimensjoner og dimensjoner for de andre kartleggingsverktøyene som måler relaterte aspekt, mens det var svakere samvariasjon mellom

som måler tilsvarende egenskaper (tabell 5).

Som det eneste av de fire kartleggingsverktøyene som er omfattet av vår oversikt, er SRI tilgjengelig i norsk versjon (25). Vi ønsket derfor å vurdere den tverrkulturelle validiteten til den norske versjonen. Manglende sammenlikning med originalversjonen for faktorstruktur samt et lavt antall respondenter i forhold

om den tverrkulturelle validiteten til den norske versjonen (tabell 5).

SRI (20–25) viste gjennomgående positive egenskaper for intern konsistens (tabell 4, se nettversjon), men på grunn av metodiske begrensninger er det likevel usikkerhet knyttet til den samlede dokumentasjonen (tabell 5). Test-retest-reliabiliteten ble vurdert å være positiv i to studier (20, 21) (tabell 4, se nettversjon), men metodiske svakheter i de to studiene gjør at vi har begrenset tillit til den samlede dokumentasjonen (tabell 5).

**” Mange pasienter med alvorlig langt-
kommen sykdom har pustebesvær.**

dimensjoner som måler ulike aspekt. Samlet dokumentasjon viser at SRI trolig samvarierer svært godt med andre PROMs

til antall spørsmål i kartleggingsverktøyet medførte at vi konkluderte med at det er behov for mer forskning før vi kan si noe sikkert

Dyspnea Management Questionnaire (DMQ)

DMQ ble utviklet i USA for å måle effekt av lungerehabilitering

Tabell 3: Karakteristika ved inkluderte PROMs

PROM	Mål-gruppe	Antall spørsmål	Dimensjoner	Måleskala (per spørsmål)	Scorings-system	Språk	Forventet utfyllings-tid
CDS	Kreft	12	Følelse av anstrengelse (5 spm) Følelse av angst (4 spm) Følelse av ubehag (3 spm) Totalskår	5-punkts Likert	Beregner totalskår per dimensjon: anstrengelse (0–20); angst (0–16); ubehag (0–12). Høyere skår indikerer mer alvorlig pustebesvær.	Japansk Engelsk Svensk	2 minutter
SRI	Kronisk respirasjons-svikt med LTMV-behandling	49	Åndedrettsplager (8 spm) Fysisk funksjon (6 spm) Tilleggssymptomer og søvn (7 spm) Sosiale relasjoner (6 spm) Angst (5 spm) Psykisk velvære (9 spm) Sosial funksjon (8 spm) Totalskår	5-punkts Likert	Beregner skår per dimensjon som prosent av maks (0–100). Høyere skår indikerer bedre livskvalitet.	Tysk Neder-landsk Spansk Engelsk Norsk	20 minutter
DMQ-30	Kols (rehabilitering)	30	Dyspnéintensitet (7 spm) Dyspnérelatert angst (7 spm) Angstrelatert aktivitets-unnngåelse (7 spm) Tiltro til aktivitetsrelatert mestringsevne (5 spm) Tilfredshet med mestrings-strategier (4 spm)	7-punkts Likert	Beregner gjennomsnittsskår per dimensjon (0–6). Totalskår kalkuleres ved å summere dimensjonene intensitet, angst og aktivitetsunnngåelse. Høyere skår indikerer bedre funksjon.	Engelsk	Ikke opp-gitt
DMQ-56	Kols (rehabilitering)	56	Dyspnéintensitet (12 spm) Dyspnérelatert angst (16 spm) Angstrelatert aktivitets-unnngåelse (15 spm) Tiltro til aktivitetsrelatert mestringsevne (6 spm) Tilfredshet med mestrings-strategier (7 spm)	7-punkts Likert	Beregner gjennomsnittsskår per dimensjon (0–6). Høyere skår indikerer bedre funksjon.	Engelsk	Ikke opp-gitt
DMQ-CAT	Kols (rehabilitering)	20	Dyspnéintensitet Dyspnérelatert angst Angstrelatert aktivitets-unnngåelse Tiltro til aktivitetsrelatert mestringsevne	6-punkts Likert	Ikke oppgitt	Engelsk	Ikke opp-gitt
RSC	Puste-besvær som følge av hjerte-/lunge-sykdom	46	Sensoriske kvaliteter (23 spm) Affektive aspekt (12 spm) Atferdsmessig påvirkning (4 spm) Andre symptomer (7 spm)	5-punkts Likert	Ikke oppgitt	Ikke oppgitt	10–15 minutter

PROM (pasientrapporterte resultatmål); CDS (Cancer Dyspnea Scale); SRI (Severe Respiratory Insufficiency Questionnaire); DMQ (Dyspnea Management Questionnaire); CAT (Computer Adaptive Test); RSC (Respiratory Symptom Checklist); LTMV (langtids mekanisk ventilasjon); kols (kronisk obstruktiv lungesykdom).

Tabell 5: Kvalitativ syntese

	Intern konsistens	Reliabilitet	Innholdsvaliditet	Strukturell validitet	Hypotese-testing	Kriterievaliditet	Tverrkulturell validitet
CDS	+++	–	+++	na	+/-	na	na
SRI	?	+	+++	?	+++	na	?
DMQ-30	++	?	+++	na	++	na	na
DMQ-56	++	+	na	?	na	na	na
DMQ-CAT	++	na	+++	+	+	++	na
RSC	na	na	na	+++	na	na	na

CDS (Cancer Dyspnea Scale); SRI (Severe Respiratory Insufficiency Questionnaire); DMQ (Dyspnea Management Questionnaire); CAT (Computer Adaptive Test); RSC (Respiratory Symptom Checklist); +++ eller – – høy evidens positivt/negativt resultat; ++ eller – – moderat evidens positivt/negativt resultat; + eller –, svak evidens positivt/negativt resultat; ± motstridende evidens; ? usikker på grunn av svak metodisk kvalitet; na, manglende informasjon.

og endring over tid hos pasienter med kols. Hensikten var også å tilrettelegge for mer målrettet behandling for fagområder som for eksempel ergoterapi og psykologi (26). Tre studier beskriver utvikling og validering av tre ulike versjoner: DMQ-30 (26), DMQ-56 (27) og DMQ-CAT (28) (tabell 2).

Data fra kvalitative intervju, en litteraturgjennomgang på områdene pustebesvær, angst, unngåelsesatferd, funksjonsstatus, helserelatert livskvalitet, brukertilfredshet og lungerehabilitering samt en gjennomgang av andre kartleggingsverktøy dan-

gang dannet grunnlaget for utvidelsen (28). Dokumentasjonen viser at DMQ-30 og DMQ-CAT trolig har svært god innholdsvaliditet (tabell 5).

Den opprinnelige femfaktormodellen for DMQ-56 ble bekreftet (27). Evaluering av faktorstrukturen til DMQ-CAT (28) viste at en firefaktormodell passet best. For begge versjonene forklarte faktorene mer enn 50 prosent av variansen, men selv om resultatet for strukturell validitet peker i positiv retning for både DMQ-56 og DMQ-CAT, er kvaliteten på dokumentasjonen begrenset (27, 28) (tabell 4, se

of Breath Questionnaire (UCSD SOBQ), CRQ, COPD Self-Efficacy Scale (CSES) og HADS (28). For begge versjonene var det sterkest samvariasjon mellom DMQ-dimensjoner og dimensjoner for de andre kartleggingsverktøyene som måler relaterte aspekt og svakest samvariasjon mellom dimensjoner som måler ulike aspekt. Dokumentasjonen viser at vi kan ha moderat tillit til at DMQ-30 samvarierer godt med andre PROMs som måler tilsvarende egenskaper, mens vi har begrenset tillit til at DMQ-CAT samvarierer godt med andre PROMs som er ment å måle tilsvarende egenskaper (tabell 5).

Sammenlikning av DMQ-CAT opp mot den totale samlingen av spørsmål antydte høy korrelasjon for alle dimensjonene, med Pearsons korrelasjonskoeffisient 0,94–0,97 (28). Totalt sett har vi moderat tillit til at kriterievaliditeten til DMQ-CAT er god (tabell 5).

Den interne konsistensen var positiv for alle de tre versjonene av DMQ (tabell 4, se nettversjon). Dokumentasjonen viser at vi kan ha moderat tillit til at den interne konsistensen til DMQ-

Ingen kartleggingsverktøy i dag er validerte for bruk til palliative pasienters egenopplevelse av pustebesvær.

net grunnlaget for utviklingen av DMQ-30. Både fagekspert og pasienter var involvert, og en preliminær versjon ble pilottestet blant voksne med kols (26). DMQ-CAT er en elektronisk versjon og ble utviklet basert på en utvidet samling av spørsmålene fra DMQ-56. Involvering av fagekspert og pasienter samt en omfattende litteraturgjennom-

netteversjon). Totalt sett er det derfor vanskelig å trekke sikre konklusjoner (tabell 5).

For hypotesetesting er DMQ-30 sammenliknet med Seattle Obstructive Lung Disease Questionnaire (SOLQ), Short Form Health Survey (SF-12) og HADS (26). DMQ-CAT ble sammenliknet med University of California, San Diego Shortness

30, DMQ-56 og DMQ-CAT er god (tabell 5).

Test-retest-reliabilitet var positivt for DMQ-30 (26) og DMQ-56 (27) (tabell 4, se nettversjon). Dokumentasjonen viser at vi kan ha begrenset til- lit til at test-retest-reliabiliteten er god for DMQ-56 (tabell 5). Det er mer usikkerhet knyt- tet til test-retest-reliabiliteten for DMQ-30, noe som først og fremst skyldes metodiske begrensninger i studien der dette ble målt.

Respiratorisk symptomsjekk- liste (RSC)

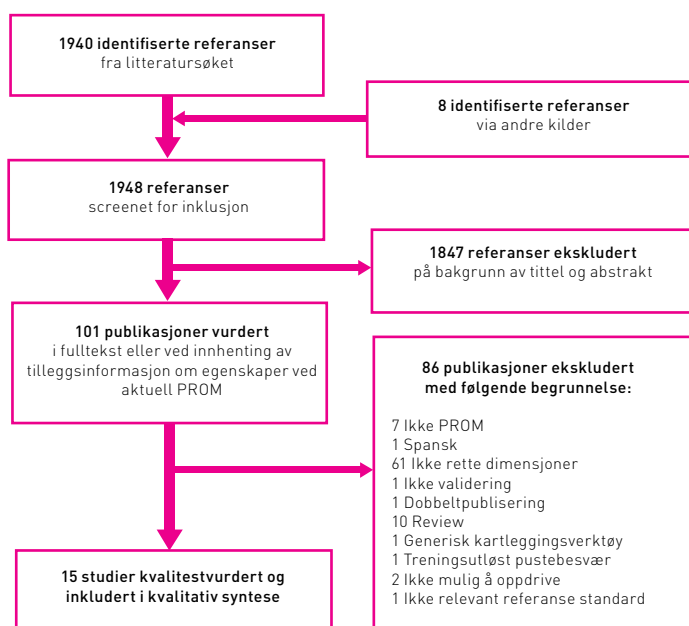
RSC ble utviklet i Kina for å måle multidimensjonale aspekt ved pustebesvær hos pasienter med hjerte- og lungesykdom (29).

Evaluering av faktorstruktu- ren viste tolv sammenhengende og ikke-korrelerede faktorer. Ved å legge til ytterligere kriterier fant Han mfl. (29) syv faktorer som synes å måle tre dimen- sjoner av pustebesvær (tabell 3), mens to resterende faktorer sorterte under andre sympto- mer. Til sammen forklarte de ni faktorene 64 prosent av den totale variansen (29). En samlet vurdering tilsier at den struktu- relle validiteten til RSC trolig er svært god, men vi mangler kunnskap om andre viktige måleegenskaper (tabell 5).

DISKUSJON

Vi identifiserte fire PROMs for kartlegging av pustebesvær som tilfredsstilte våre inklus- jonskriterier: CDS, SRI, DMQ og en respiratorisk symptom- sjekkliste, hvorav bare SRI var tilgjengelig i en norsk validert versjon. Måleegenskapene til de fire kartleggingsverktøyene var evaluert i 15 studier. Ingen av de inkluderte PROMs var direkte validert for bruk i en

Figur 1: Flytskjema over identifisert litteratur



palliativ setting, men viser jevnt over lovende egenskaper i andre relevante settinger. Den respira- toriske symptomsjekklisten skil- ler seg ut som den klart minst studerte, men også for de andre kartleggingsverktøyene er det behov for mer forskning for å avklare viktige måleegenskaper.

Styrker og svakheter ved studien

Vi utarbeidet denne systematiske oversikten i tråd med anbefalinger fra COSMIN-initiativet, som tar hensyn til de spesielle aspek- tene ved validering av PROMs. Oversikten bygger på et bredt og systematisk litteratursøk. Alle trinnene i utarbeidelsen ble gjennomført av to personer uav- hengig av hverandre, eller de ble utført av én og kvalitetssikret av en annen person. Mangler ved sammendrag og indeksering av studier om måleegenskaper er en

utfordring for litteratursøk til oversikter over PROMs (9). En svakhet ved vårt litteratursøk er at søkeord for respirasjonssvikt ikke var inkludert. Flere av stu- diene om SRI ble derfor først identifisert ved gjennomgang av relevante studier. Dette med- fører en risiko for at det finnes andre relevante PROMs som vi ikke har identifisert. Vi har ikke hatt kapasitet til å søke etter «grå litteratur», gjennomføre supplerende søk på inkluderte PROMs eller kontakte fagper- soner. Samlet sett innebærer dette en risiko for at det finnes relevante publikasjoner som vi ikke har identifisert.

Vi kvalitetsvurderte de inkluderte studiene etter først å ha gjennomført en grundig pilote- ring. Sjekklisten gjorde det mulig å gi en separat vurdering av de ulike måleegenskapene som var

evaluert i en og samme studie. En utfordring har vært at vi ikke alltid har hatt mulighet for å skille mellom mangelfull rapportering og dårlig kvalitet i studien. Vi har ikke hatt kapasitet til å kontakte forfattere for avklaringer omkring dette.

Studienes metodiske kvalitet

To hovedutfordringer ved de inkluderte studienes metodiske kvalitet er størrelsen på utvalgene og mangelfull rapportering om hypoteser. Størrelsen på utvalgene var ofte for små, og hver for seg hadde ingen av studiene nok respondenter til å

definerte hypoteser og bare 48 prosent av disse hadde beskrevet forventet retning og størrelse på samvariasjonen. Ved manglende hypoteser er det fare for at man finner alternative forklaringer på resultatene, og at risikoen for systematiske skjevheter øker (9).

Betydning for praksis og videre forskning

Oppsummering av resultatene og den kvalitative syntesen viste at vi har begrenset tillit til dokumentasjonen og mangler kunnskap om viktige måleegenskaper for alle de inkluderte kartleggingsverktøyene.

” Vi fant bare ett kartleggingsverktøy i norsk versjon.

evaluere test-retest-reliabilitet. Når intern konsistens og strukturell validitet skal evalueres, er anbefalt utvalgsstørrelse fem til syv ganger antall spørsmål og minimum 100 (14, 30). Dette medfører at kartleggingsverktøy med mange spørsmål som for eksempel SRI skårer svakt for internkonsistens og strukturell validitet for alle de inkluderte studiene. Terwee mfl. (31), som har oppsummert metodisk kvalitet ved studier om måleegenskaper i en systematisk oversikt, fant også at utvalgsstørrelsen var en betydelig utfordring for evaluering av mange måleegenskaper.

Flere av studiene hadde ikke forhåndsformulerte hypoteser, eller de var mangelfullt formulert når det gjaldt forventet størrelse eller retning på samvariasjonen. Det var ikke alltid klart om det skyldtes mangler ved studien eller ved rapporteringen. Terwee mfl. (31) fant i sin studie at mindre enn 50 prosent av studiene hadde forhånds-

Det at vi har begrenset tillit til dokumentasjonen, betyr ikke at måleegenskapene er dårlige, men at de fortsatt er uavklarte (31). Selv om noen av de identifiserte kartleggingsverktøyene er bedre studert enn andre, er det foreløpig vanskelig å gi et klart svar på om noen av de tilgjengelige verktøyene har bedre måleegenskaper enn de andre.

For PROMs som skal benyttes til kartlegging av palliative pasienter i klinisk praksis, er det viktig at kartleggingsverktøyene ikke er for omfattende eller krever for mye ressurser til utfylling og administrering (32). Her peker CDS seg ut med tolv spørsmål og en forventet utfyllingstid på to minutter (15). DMQ-CAT skreddersyr spørsmålene til respondenten ut fra ett inngangsspørsmål (28). Belastningen for pasienten blir dermed redusert ved at bare de mest informative og relevante spørsmålene må besvares. For å benytte DMQ-CAT kreves det tilgang og kompetanse for

å bruke elektronisk verktøy.

Ingen av kartleggingsverktøyene vi identifiserte, er validerte for bruk til palliative pasienter uavhengig av diagnose, og bare SRI er oversatt til norsk. I tillegg til de metodiske svakhetene som er påpekt og måleegenskaper som ennå ikke er evaluert, innebærer det at de relevante PROMs må valideres videre i studier av god kvalitet. Studiene bør særlig ha store nok utvalg, forhåndsformulering av hypoteser samt god og tilstrekkelig rapportering av studiens gjennomføring. Det er også viktig at kartleggingsverktøyenes responsivitet evalueres, slik at vi får kunnskap om verktøyet evner å fange opp viktige forskjeller som for eksempel effekt av behandling eller forverring av helsetilstand. COSMIN kan med fordel benyttes som veiledning for planlegging og rapportering av nye valideringsstudier.

KONKLUSJON

Fire kartleggingsverktøy for pustebesvær tilfredsstilte våre inklusjonskriterier. Av de tre best studerte kartleggingsverktøyene (CDS, SRI og DMQ) er det ingen som skiller seg ut med klart bedre validitet og måleegenskaper, men CDS og DMQ-CAT synes mest brukervennlige når det gjelder tid til utfylling og belastning for pasientene. SRI er det eneste av verktøyene som er tilgjengelig i norsk validert versjon, noe som er en viktig forutsetning for bruk i en norsk setting. Videre forskning er nødvendig for å validere og gjøre kartleggingsverktøyene tilgjengelige for bruk i en palliativ setting i Norge.

Takk til seniorrådgiver og bibliotekar Hilde Strømme, som har fagfellevurdert litteratursøkene.

REFERANSER

1. Bausewein C, Jolley C, Reilly C, Lobo P, Kelly J, Bellas H, et al. Development, effectiveness and cost-effectiveness of a new out-patient Breathlessness Support Service: study protocol of a phase III fast-track randomised controlled trial. *BMC Pulm Med*. 2012;12:58.
2. Helsedirektoratet. Nasjonalt handlingsprogram for palliasjon i kreftomsorgen. 2015. Tilgjengelig fra: <https://helsedirektoratet.no/Lists/Publikasjoner/Attachments/918/Nasjonalt%20handlingsprogram%20for%20palliasjon%20i%20kreftomsorgen-IS-2285.pdf>. [Nedlastet 01.12.15].
3. Edmonds P, Karlsten S, Khan S, Addington-Hall J. A comparison of the palliative care needs of patients dying from chronic respiratory diseases and lung cancer. *Palliat Med*. 2001;15(4):287-95.
4. Bausewein C, Booth S, Higginson IJ. Measurement of dyspnoea in the clinical rather than the research setting. *Curr Opin Support Palliat Care*. 2008;2(2):95-9.
5. American Thoracic Society. Dyspnea: mechanisms, assessment, and management. A consensus statement. *Am J Respir Crit Care Med*. 1999;159(1):321-40.
6. Antunes B, Harding R, Higginson IJ. Implementing patient-reported outcome measures in palliative care clinical practice: a systematic review of facilitators and barriers. *Palliat Med*. 2014;28(2):158-75.
7. Bausewein C, Farquhar M, Booth S, Gysels M, Higginson IJ. Measurement of breathlessness in advanced disease: a systematic review. *Respir Med*. 2007;101(3):399-410.
8. Dorman S, Byrne A, Edwards A. Which measurement scales should we use to measure breathlessness in palliative care? A systematic review. *Palliat Med*. 2007;21(3):177-91.
9. de Vet HCW, Terwee CB, Mokkink LB, Knol DL. Measurement in medicine: a practical guide. Cambridge University Press, Cambridge. 2011.
10. Mokkink LB, Terwee CB, Patrick DL, Alonso J, Stratford PW, Knol DL, et al. The COSMIN study reached international consensus on taxonomy, terminology, and definitions of measurement properties for health-related patient-reported outcomes. *J Clin Epidemiol*. 2010;63(7):737-45.
11. Mokkink LB, Terwee CB, Patrick DL, Alonso J, Stratford PW, Knol DL, et al. The COSMIN checklist for assessing the methodological quality of studies on measurement properties of health status measurement instruments: an international Delphi study. *Qual Life Res*. 2010;19(4):539-49.
12. Solvåg K. Kartlegging av puste-
besvær hos palliative pasienter – en systematisk kunnskapsoversikt over tilgjengelige kartleggingsverktøy og deres måleegenskaper (masteroppgave). Høgskolen i Bergen. 2015.
13. COSMIN. COSMIN checklist with 4-point scale. COSMIN; 2011. Tilgjengelig fra: <http://www.cosmin.nl/>. [Nedlastet 01.12.15].
14. Mokkink LB, Terwee CB, Patrick DL, Alonso J, Stratford PW, Knol DL, et al. COSMIN checklist manual. COSMIN; 2012. Tilgjengelig fra: <http://www.cosmin.nl/images/upload/files/COSMIN%20checklist%20manual%20v9.pdf>. [Nedlastet 01.12.15].
15. Tanaka K, Akechi T, Okuyama T, Nishiwaki Y, Uchitomi Y. Development and validation of the Cancer Dyspnoea Scale: a multidimensional, brief, self-rating scale. *Br J Cancer*. 2000;82(4):800-5.
16. Tanaka K, Akechi T, Okuyama T, Nishiwaki Y, Uchitomi Y. Factors correlated with dyspnea in advanced lung cancer patients: organic causes and what else? *J Pain Symptom Manage*. 2002;23(6):490-500.
17. Hénoc H, Bergman B, Gaston-Johansson F. Validation of a Swedish version of the Cancer Dyspnea Scale. *J Pain Symptom Manage*. 2006;31(4):353-61.
18. Uronis HE, Shelby RA, Currow DC, Ahmedzai SH, Bosworth HB, Coan A, et al. Assessment of the psychometric properties of an English version of the cancer dyspnea scale in people with advanced lung cancer. *J Pain Symptom Manage*. 2012;44(5):741-9.
19. Windisch W, Freidel K, Schucher B, Baumann H, Wiebel M, Matthys H, et al. The Severe Respiratory Insufficiency (SRI) Questionnaire: a specific measure of health-related quality of life in patients receiving home mechanical ventilation. *J Clin Epidemiol*. 2003;56(8):752-9.
20. Duiverman ML, Wempe JB, Bladder G, Kerstjens HA, Wijkstra PJ. Health-related quality of life in COPD patients with chronic respiratory failure. *Eur Respir J*. 2008;32(2):379-86.
21. Lopez-Campos JL, Failde I, Masa JF, Benítez-Moya JM, Barrot E, Ayerbe R, et al. Transculturally adapted Spanish SRI questionnaire for home mechanically ventilated patients was viable, valid, and reliable. *J Clin Epidemiol*. 2008;61(10):1061-6.
22. Windisch W, Budweiser S, Heineemann F, Pfeifer M, Rzehak P. The Severe Respiratory Insufficiency Questionnaire was valid for COPD patients with severe chronic respiratory failure. *J Clin Epidemiol*. 2008;61(8):848-53.
23. Ghosh D, Rzehak P, Elliott MW, Windisch W. Validation of the English Severe Respiratory Insufficiency Questionnaire. *Eur Respir J*. 2012;40(2):408-15.
24. Struik FM, Kerstjens HA, Bladder G, Sprooten R, Zijnen M, Asin J, et al. The Severe Respiratory Insufficiency Questionnaire scored best in the assessment of health-related quality of life in chronic obstructive pulmonary disease. *J Clin Epidemiol*. 2013;66(10):1166-74.
25. Markussen H, Lehmann S, Nilsen RM, Natvig GK. The Norwegian version of the Severe Respiratory Insufficiency Questionnaire. *Int J Nurs Pract*. 2014.
26. Norweg A, Whiteson J, Demetis S, Rey M. A new functional status outcome measure of dyspnea and anxiety for adults with lung disease: the dyspnea management questionnaire. *J Cardiopulm Rehabil*. 2006;26(6):395-404.
27. Norweg A, Jette AM, Ni P, Whiteson J, Kim M. Outcome measurement for COPD: reliability and validity of the Dyspnea Management Questionnaire. *Respir Med*. 2011;105(3):442-53.
28. Norweg A, Ni P, Garshick E, O'Connor G, Wilke K, Jette AM. A multidimensional computer adaptive test approach to dyspnea assessment. *Arch Phys Med Rehabil*. 2011;92(10):1561-9.
29. Han JN, Xiong CM, Yao W, Fang QH, Zhu YJ, Cheng XS, et al. Multiple dimensions of cardiopulmonary dyspnea. *Chin Med J*. 2011;124(20):3220-6.
30. Terwee CB, Mokkink LB, Knol DL, Ostelo RW, Bouter LM, de Vet HC. Rating the methodological quality in systematic reviews of studies on measurement properties: a scoring system for the COSMIN checklist. *Qual Life Res*. 2012;21(4):651-7.
31. Terwee CB, Schellingerhout JM, Verhagen AP, Koes BW, de Vet HC. Methodological quality of studies on the measurement properties of neck pain and disability questionnaires: a systematic review. *J Manipulative Physiol Ther*. 2011;34(4):261-72.
32. Bausewein C, Daveson B, Benalia H, Simon ST, Higginson IJ. Outcome measurement in palliative care: the essentials. PRISMA, London. 2011.
33. Schellingerhout JM, Heymans MW, Verhagen AP, de Vet HC, Koes BW, Terwee CB. Measurement properties of translated versions of neck-specific questionnaires: a systematic review. *BMC Med Res Methodol*. 2011;11:87.
34. Schellingerhout JM, Verhagen AP, Heymans MW, Koes BW, de Vet HC, Terwee CB. Measurement properties of disease-specific questionnaires in patients with neck pain: a systematic review. *Qual Life Res*. 2012;21(4):659-70.
35. Terwee CB, Bot SDM, de Boer MR, van der Windt DAWM, Knol DL, Dekker J, et al. Quality criteria were proposed for measurement properties of health status questionnaires. *J Clin Epidemiol*. 2007;60(1):34-42.