

Foreldre til barn med oesophagusatresi – viktig kilde til kunnskap



Medisin
og vitenskap

Bakgrunn. Flere oppfølgingsundersøkelser av barn med oesophagusatresi har vist at spiseproblemer og respiratoriske plager de første leveårene er vanlig. Det finnes få gode psykososiale oppfølgingsundersøkelser. I forbindelse til en stor oppfølgingsundersøkelse av barn og ungdom med slik lidelse, ønsket vi å bruke foreldrenes kunnskap for å undersøke sykdommens forløp.

Materialer og metoder. Vi spurte 29 foreldre som deltok på et kurs i regi av Norsk forening for øsofagusatresi, om de ville delta i en spørreundersøkelse vedrørende foresattes erfaringer og barnas somatiske og psykososiale funksjon.

Resultater. Foreldre til 25 barn (86 %) med median alder fire år (åtte måneder til 16 år) svarte. Hovedproblemene som ble rapportert, var kronisk hoste (17/25), luftveisinfeksjoner (12/25), hvesing, surkling eller tungpustethet (19/25), svelgeproblemer (23/25) og at sykdommen hemmet barna i sosiale sammenhenger (11/23), spesielt i situasjoner tilknyttet måltider.

Fortolkning. Selv om seleksjon kan ha påvirket resultatene, rapporterte foreldrene om vedvarende kroniske respiratoriske plager, måltidsrelaterte problemer og psykososiale problemer hos deres barn utover tidlig barndom.

I tiårsperioden 1987–96 ble det årlig født gjennomsnittlig 13 barn (6–19 barn) med oesophagusatresi i Norge (1). Dette er en alvorlig misdannelse hvor oesophagus ender blindt, ofte kombinert med trakeoøsofageal fistel. 25–50 % av barn med oesophagusatresi har andre misdannelser, hyppigst i hjerte, kar, muskulatur, skjelett, tarm og urinveier. Den kirurgiske behandlingen og oppfølgingen av barna er organisert som en flerregional oppgave. Rikshospitalet er det sykehuset som behandler flest barn med denne sjeldne tilstanden i Norge.

Overlevelsen for pasienter med oesophagusatresi som ikke var premature eller hadde andre alvorlige lidelser, økte fra 73 % i 1964 til 95 % i 1977 (2). Det er imidlertid fortsatt høy forekomst av både tidlige og sene postoperative komplikasjoner. I store materialer

Anne Faugli

anne.faugli@klinmed.uio.no

Barne- og ungdomspsykiatrisk seksjon
Barneklivnikken

Kristin Bjørnland

Hans Skari

Ragnhild Emblem

Barnekirurgisk seksjon
Kirurgisk avdeling B

Rikshospitalet

0027 Oslo

Faugli A, Bjørnland K, Skari H, Emblem R.

Parents of children with oesophageal atresia have valuable knowledge on long-term results.

Tidsskr Nor Lægeforen 2002; 122: 1768–70

Background. Follow-up studies on children with oesophageal atresia have shown that they often have eating and respiratory problems in early childhood. Psychosocial follow-up studies are scarce. In the design of a comprehensive biopsychosocial follow-up study of children and adolescents with oesophageal atresia, we wanted to include the knowledge of parents regarding the course of the disease.

Material and methods. We asked 29 parents participating in a meeting of members of the Norwegian support group for oesophageal atresia to complete a questionnaire about the somatic and psychosocial functioning of their child. Parental satisfaction with the health services responsible for their child was also assessed.

Results. Parents of 25 children (86 %) with median age 4 years (8 months–16 years) responded. The main problems reported were related to respiratory infections (12/25), chronic cough (17/25), wheezing (19/25), swallowing difficulties (23/25), and psychosocial problems related to meals (11/23).

Interpretation. Although selection bias may have influenced the results, the parents reported enduring respiratory, feeding and psychosocial problems beyond their child's early childhood.

rapporteres anastomosestriktur (49 %), postoperativ pneumoni eller atelektase (57 %), trakeomalasi (26 %) og gastroøsofageal refluks (52 %) (3). Det er rapportert spiseproblemer i tidlig barndom og gjentatte respiratoriske problemer hos barn med oesophagusatresi (4–6), men det er få gode oppfølgingsundersøkelser på feltet.

I Norge ble det i 1983 etablert en foreldreforening for barn med oesophagusatresi, *Norsk forening for øsofagusatresi*. Foreningen hadde per oktober 2000 i alt 198 medlemmer. Foreldre til barn med oesophagus-

atresi har mye kunnskap om flere aspekter omkring sykdommen. Vi ønsket å bruke foreldrenes erfaring til å belyse hvordan det går med barna på lang sikt. Resultatene ønsket vi å bruke i tilretteleggingen av en stor etterundersøkelse av barn med denne lidelsen. Vi ønsket også å undersøke foreldrenes tilfredshet med helsevesenets oppfølging av barna for å få vite om det er noe vi kan forbedre.

Materiale og metode

Foreldre til 29 barn med oesophagusatresi deltok på et informasjonskurs i regi av Norsk forening for øsofagusatresi i oktober 2000. Alle foreldrene fikk informasjon om bakgrunnen og hensikten med undersøkelsen, og et skjema med 47 spørsmål utarbeidet spesielt for denne undersøkelsen. Vi understreket at deltakelse var frivillig. Vi spurte foreldrene om barnets sykehistorie og somatiske plager de siste 12 månedene, om oesophagusatresi på noen måte hemmet barnets livsutfoldelse, om barnets generelle trivsel og om tilfredshet med oppfølgingen fra helsevesenet. Undersøkelsen var anonymisert. En eller begge foreldre fylte ut skjemaet for sitt barn, og de ble bedt om å levere det inn før de forlot kurset. Etter tre måneder ble alle deltakerne kontaktet enten per telefon eller per brev. De ble bedt om å returnere skjemaet dersom de ikke allerede hadde gjort det. Kontinuerlige variabler presenteres som median og spredning.

Resultater

Pasienter og sykehistorie

Vi fikk svar fra foreldre til 25 barn (86%) med alder fire år (åtte måneder til 16 år). På enkelte spørsmål har ikke alle svart, uten at det var noe spesielt mønster i dette. Tabell 1 viser tilleggssykdommer som var behandlet kirurgisk eller medisinsk. 15 barn hadde gjennomgått i gjennomsnitt sju blokkinger (1–60 blokkinger) av oesophagus på grunn av striktur. Hos 13/15 barn ble blokkinger utført i generell anestesi. 16 barn hadde hatt symptomer på gastroøsofageal refluks. Ni barn brukte antirefluksmedikasjon, og sju var operert for gastroøsofageal refluks.

Mer enn halvparten av barna hadde kroniske plager fra luftveiene (tab 2). Av de tre som ikke hadde noen plager, var en over seks år.

Måltider og spisemønster

Tre av sju barn under to år spiste mat med finere konsistens enn det som var vanlig for alderen. Brødmåltid ble vanligvis introdusert i 13-månedersalder (6–30 måneder) og middagsmat i åttémånedersalder (5–24 måneder). Ett barn på to år ble ernært via gastrostomi. Barn under to år brukte 30 minutter (20–60 minutter) per måltid. Tabell 3 viser tidsforbruk per måltid for barn i alderen 2–16 år. Omtrent halvparten (10/19) av foreldre til barn på to år eller mer rapporterte at barnet spiste saktere enn kamerater eller søsken.

Tabell 1 Tilleggssykdommer hos 25 pasienter i alderen 0–16 år med oesophagusatresi. Åtte hadde kun oesophagusstriktur og ingen andre sykdommer. En pasient kan ha flere sykdommer

Type sykdom	Antall pasienter
Gastroøsofageal refluks	16
Oesophagusstriktur	15
Astma	4
Skjelettanomali	4
Pylorusstenose	2
Fallots tettrade	1
Pulmonal stenose	1
Ventrikkelseptumdefekt (liten)	1
Analatresi	1
Residiverende urinveisinfeksjoner	1
Strabisme	1
Torticollis	1
Lyskebrokk	1
Epilepsi	1
Diastema laryngis	1
Ingen tilleggssykdommer	3

23 av 25 angav at barnet satte fast mat slik at det måtte hoste, drikke eller stikke fingeren i halsen for å få maten opp eller ned. Nesten alle barn over seks år (8/9) hadde dysfagi. 20 barn måtte ta pauser i forbindelse med måltidet. 11 unngikk spesielle mat-sorter, for eksempel pølser, kjøtt, gulrøtter, mais og fint brød.

Psykososiale forhold

Av 23 som besvarte spørsmålet om sykdommen hemmet barnet på noen måte, svarte 11 at barnet var hemmet enten i skoleaktiviteter, i det sosiale liv, i venneflokken eller på andre områder. Dette gav problemer ved samling rundt måltider i barnehage, skole og bursdagsselskaper. For noen var det flaut å være tynn. Det var også flaut å få kommentert kroppens utseende (arr) i dusjen eller den karakteristiske hosten barn med oesophagusatresi har. Noen ble fort slitne og kunne ikke delta i samme aktiviteter som jevnaldrende, og noen måtte holde seg i ro etter måltider for ikke å få gastroøsofageal refluks. En toåring måtte alltid være under oppsyn av en voksen fordi hun plutselig kunne få brekningsanfall og måtte ha hjelp.

To foreldre svarte at barnet hadde redusert trivsel. Det ene var et spedbarn som hadde gastroøsofageal refluks. Det andre var en ungdom som følte seg annerledes enn andre. To barn som var blitt blokket uten narkose, hadde enten psykiske problemer eller redusert trivsel.

20 svarte på hva som hadde gjort sterkest inntrykk av det de hadde opplevd i forbindelse med behandlingen. 12 av disse rapporterte at de hadde opplevd de sterkeste inntrykkene i løpet av barnets første leveår. Det handlet om usikkerhet rundt hva som var galt med barnet, at barnet ble sendt til et annet sykehus uten foreldrene, at barnet måtte opereres, at det føltes vondt å ligge sammen med mødre som hadde babyene sine hos seg, at det gikk flere dager før de kunne holde barnet sitt, hjelpeløshet overfor sitt eget barn, suging i svelget, komplikasjoner og smertefulle medisinske prosedyrer. Åtte hadde de sterkeste opplevelsene knyttet til tiden etter de første leveukene. Det handlet om hverdagsproblemer i forbindelse med mat som satte seg fast i spiserøret, pusteproblemer, lungebetennelser, usikkerhet og redsel. Manglende omsorg og forståelse fra hjelpeapparatet hadde vært den sterkeste opplevelsen for to. Fem rapporterte at deres sterkeste opplevelser var positive, slik som vellykket operasjon, at refluksplagene ble behandlet og spisingen gikk bedre og at de møtte høy faglig kompetanse og engasjement fra kirurger og sykepleiere.

Oppfølging fra helsevesenet

17 foreldre var tilfreds, mens sju foreldre var utilfreds med oppfølging og kontroll ved barnekirurgisk avdeling. Seks var tilfreds og ti var utilfreds med lokal barneavdeling. Fem var tilfreds og 12 var utilfreds med det lokale helsetilbudet. Årsaker til utilfredshet var mangelfull oppfølging ved barnekirurgisk avdeling etter ett års alder og mangelfull støtte og lite kunnskap om oesophagusatresi i det lokale hjelpeapparatet.

Diskusjon

Det er overraskende at nesten alle de eldre barna hadde problemer med dysfagi og kroniske luftveisplager. Disse funnene er tidligere beskrevet hos yngre barn (4–6). Det er også overraskende at så mange foreldre rapporterte psykososiale tilpasningsproblemer hos barnet, selv om det tidligere er beskrevet en tendens til økt forekomst av emosjonelle

Tabell 2 Hoste og respirasjonssymptomer siste 12 måneder

Symptomer	Totalt	Ofte	Av og til
Påfallende hoste dag og natt	17	6	11
Måltidsprovoserte hosteanfall	17	2	15
Luftveisinfeksjoner/bronkitter	18	12 ¹	6
Hvesing/surkling/tungpustethet	19	3	16
Ingen symptomer	3	–	–

¹ Ofte er to eller flere

problemer, lærevansker og atferdsproblemer hos barn med oesophagusatresi (7, 8). Våre funn samsvarer med Schier og medarbeideres (9) og understreker at oesophagusatresi for mange medfører langtidsplager som helsevesenet ikke har vært tilstrekkelig oppmerksom på.

Vi har ikke kontrollgruppe for tidsforbruk på måltider, men registrert tidsforbruk synes absolutt langt. Dette stemmer med foreldrenes opplevelser. Vi vet ikke årsaken til at barna bruker lang tid på å spise, ikke spiser mat med aldersadekvat konsistens eller hvorfor noen unngår bestemte matvarer. Det kan være svelgeproblemer, erfaringer med at mat setter seg fast i spiserøret, overfølsomhet i munn eller ubehagelige opplevelser i munn/svelg, foreldrenes engstelse eller andre forhold. Vi vet heller ikke hvordan disse problemene virker inn på psykososial tilpasning. I foreldrenes beskrivelser av egne opplevelser med å ha et barn med oesophagusatresi er usikkerhet, hjelpeløshet, maktesløshet og redd ord som går igjen. Å få barnet til å spise og legge på seg har betydning for foreldrenes opplevelse av å være kompetente. Hvilke følger dette kan få for barnets senere psykososiale funksjon, er ikke inngående undersøkt, verken nasjonalt eller internasjonalt.

Spørreundersøkelsen ble utført i et lite, selektert utvalg av foreldre i en interesseorganisasjon for oesophagusatresi der det er stor aldersspredning blant barna. Bare medlemmer som deltok på et bestemt informasjonskurs, ble inkludert. Fordelingen av tilleggsmisdannelser (36%) og type misdannelser i utvalget samsvarer bra med litteraturen (10). Det er imidlertid nærliggende å tro at foreldre til pasienter med mer kompliserte forløp er i flertall på et slikt møte. Dette lar seg ikke bekrefte, da undersøkelsen var anonymisert. Vi vil anta at utvalgsskjevhet i denne undersøkelsen gir seg utslag i tyngre og mer vedvarende problematikk i utvalget enn i den generelle populasjonen av barn med oesophagusatresi.

De negative opplevelsene med behandlingsapparatet som enkelte foreldre beskrev, er velkjente generelle problemer som helsevesenet bør være oppmerksom på. Qvam og medarbeidere beskrev foreldrenes behov for

Tabell 3 Median tidsforbruk per måltid for 19 barn med oesophagusatresi i alderen 2–16 år. Spredning er vist i parentes

Måltid	Tidsforbruk (min)
Frokost	30 (5–60)
Lunsj/skolemåltid	20 (10–60)
Middag	30 (5–60)
Kveldsmat	30 (5–60)

informasjon, praktisk omsorg og emosjonell støtte i Tidsskriftet i 1979 (11). Rapporteringene i vårt materiale viser at dette temaet er like aktuelt i dag.

Konklusjon

Resultatene bekrefter behovet for å undersøke forløpet til barn med oesophagusatresi både somatisk og psykososialt. Ved Rikshospitalet pågår en biopsykososial etterundersøkelse av ca. 90 barn og ungdommer med oesophagusatresi hvor vi har brukt informasjon fra denne undersøkelsen til å tilrettelegge intervju av foreldre og barn, tilpasse spørreskjema og bestemme hvilke medisinske undersøkelser som skal gjøres. Foreldrenes evaluering av hjelpeapparatet viser at flerregionsavdelingene må gi det lokale hjelpeapparatet bedre kunnskap om hvordan de skal forholde seg til oppfølgingen av det enkelte barn med oesophagusatresi. Senter for sjeldne sykdommer og syndromer har spesiell kompetanse om oesophagusatresi og kan også gi råd. Rapporteringene i vårt materiale indikerer klart et behov for oppfølging utover ett års alder. Om det er behov for oppfølging fra flerregionsavdelingen etter ett års alder er ennå ikke vitenskapelig godt nok dokumentert. Den pågående etterundersøkelsen vil bidra til å avklare dette bedre.

Undersøkelsen har vist at foreldre er en viktig kilde til kunnskap som kan hjelpe oss på vei til et bedre behandlingstilbud for pasientgruppen. De kan angi mål på sykkelighet og psykososiale problemer og kan bidra til en evaluering av helsevesenets tilbud. Det å bruke foreldregupper direkte som informasjonskilde for evaluering av barns helse, er en lite brukt metode (7), men den er rask og

enkel å gjennomføre. Det bør vurderes å anvende denne tilnærmingen på flere kroniske sykdommer som affiserer barn.

Spesialsykepleier Sonja Rosvold bidro til utformingen av spørreskjemaet som ble brukt i denne undersøkelsen. Hun var en viktig pådriver i arbeidet med oesophagusatresipasientene gjennom sitt mangeårige virke ved Barnekirurgisk seksjon på Rikshospitalet og som kontaktsykepleier for Norsk forening for øsofagusatresi. Hun døde dessverre brått i desember 2000. Vi minnes henne i takknemlighet for bidraget til denne undersøkelsen.

Vi takker Norsk forening for øsofagusatresi for at vi fikk lov til å gjøre undersøkelsen blant deres medlemmer.

Litteratur

1. Medisinsk fødselsregister. Fødsler i Norge gjennom 30 år. Bergen: Universitetet i Bergen, 1997.
2. Drabløs P, Knuterud O. Medfødte misdannelser i oesophagus. Tidsskr Nor Lægeforen 1977; 29: 1484–5.
3. Okada A, Usui N, Inoue M, Kawahara H, Kubota A, Imura K et al. Esophageal atresia in Osaka: a review of 39 years' experience. J Pediatr Surg 1997; 32: 1570–4.
4. Ure BM, Slany E, Eypasch EP, Gharib M, Holschnaider AM, Trodl H. Quality of life more than 20 years after repair of esophageal atresia. J Pediatr Surg 1998; 33: 511–5.
5. Puntis JW, Ritson DG, Holden CE, Buick RG. Growth and feeding problems after repair of oesophageal atresia. Arch Dis Child 1990; 65: 84–8.
6. Lehner M. Esophageal atresia and quality of life. Zeitschrift für Kinderchirurgie 1989; 45: 209–11.
7. Lindahl H. Long-term prognosis of successfully operated esophageal atresia – with aspects on physical and psychological development. Zeitschrift für Kinderchirurgie 1984; 39: 6–10.
8. Bouman NH, Koot HM, Hazebroek FWJ. Long-term physical, psychological, and social functioning of children with esophageal atresia. J Pediatr Surg 1999; 34: 399–404.
9. Schier F, Korn S, Michel E. Experiences of a parent support group with the long-term consequences of esophageal atresia. J Pediatr Surg 2001; 36: 605–10.
10. Cudmore RE. Oesophageal atresia and tracheo-oesophageal fistula. I: Lister J, Irving IM, red. Neonatal surgery. 3. utg. London: Butterworths, 1990: 234.
11. Qvam E, Sommereth R, Vandvik IH. Fødsel av funksjonshemmet barn og perinatal barnedød. Tidsskr Nor Lægeforen 1979; 99: 1205–8.

○