

Medicinsk teknologivurdering af respiratorbehandling i eget hjem

2017



**Region
Hovedstaden**



REGION NORDJYLLAND



Region
Syddanmark



DE
FACT
UM[®]

Medicinsk teknologivurdering af respiratorbehandling i eget hjem

DEFACTUM®, Region Midtjylland, 2017

Emneord:

Medicinsk teknologivurdering, MTV, effekt, risici, etik, patient, organisation, sundhedsvæsen, sundhedsøkonomi, systematisk litteraturgennemgang, interview, respirator, respiratorbehandling i eget hjem, HMV, visitation, overvågning.

Keywords:

Health technology assessment, HTA, technology, patient, organisation, health care system, cost, health economy, systematic review, interview, ventilator, home mechanical ventilation, HMV, visitation, surveillance.

Sprog: Dansk med engelsk resumé

Udgivet af: DEFACTUM, juni 2017

Udgave: 1. udgave

ISBN: 978-87-92400-78-9 (PDF-/elektronisk version)

ISBN: 978-87-92400-79-6 (sammenfatning)

ISBN: 978-87-92400-80-2 (summary)

Denne publikation citeres således:

DEFACTUM

Medicinsk teknologivurdering af respiratorbehandling i eget hjem.

Aarhus: DEFACTUM, Region Midtjylland, 2017.

Publikationen kan frit refereres med tydelig kildeangivelse.

For yderligere oplysninger rettes henvendelse til:

DEFACTUM

Olof Palmes Allé 15

8200 Aarhus N

Tlf.: 7841 4350

E-mail: mtv-stf@rm.dk

Hjemmeside: www.defactum.dk

Rapporten kan downloades fra www.defactum.dk, søg under udgivelser.

Forord

Denne medicinske teknologivurdering (MTV) omhandler respiratorbehandling i eget hjem.

Projektet tager afsæt i, at der de senere år er observeret en betydelig vækst i antallet af respiratorbrugere med hjælperordning i eget hjem. Det er uklart, hvad der forårsager denne vækst i antallet af respiratorbrugere med hjælperordninger i eget hjem, men da omkostninger til et enkelt hjælpe-team kan løbe op i flere millioner kroner på årsbasis, betyder det samtidig en voldsom tilvækst i de samlede omkostninger på området.

Sundhedsdirektørkredsen i Danske Regioner har derfor ønsket at igangsætte arbejdet med at vurdere, hvordan de rette forudsætninger kan etableres, for at respiratorbehandling i eget hjem (med overvågning) tilbydes de rette patienter, samt hvorledes respiratorbehandling i eget hjem mest hensigtsmæssigt kan organiseres. Dette for at sikre optimal patientbehandling og ressourceudnyttelse i sundhedssektoren.

MTV-rapporten er udarbejdet af en tværfagligt og tværvideenskabeligt sammensat projektgruppe og hviler på relevant faglig, forskningsmæssig og metodisk viden. DEFACTUM, Region Midtjylland, har været projektudfører på MTV-rapporten, og der er etableret en følge-gruppe til projektet.

Rapporten henvender sig til beslutningstagere i regionerne og kan anvendes i beslutningsprocesser lokalt og nationalt samt hos de faggrupper, som varetager og udfører behandlingen af respiratorbrugere i eget hjem.

DEFACTUM vil gerne takke medlemmerne af projektgruppen for indsatsen i forbindelse med udarbejdelse af rapporten, ligesom projektets følge-gruppe skal have tak for bidrag og bemærkninger. Endelig skal faglige og metodiske referenter samt peer-reviewere have tak for rådgivning og kommentarer.

Rapporten udgives som fuld version med engelsk resumé samt en dansk sammenfatning.

Maj 2017
Camilla Palmhøj Nielsen
Forskningsleder
Folkesundhed & Sundhedstjenesteforskning
DEFACTUM

Indhold

Forord	3
Resumé	5
Summary	8
Ordliste	10
1 Introduktion	12
2 Baggrund	12
3 Effektforhold	27
4 Risiko	45
5 Patient- og pårørendeperspektiver	54
6 Etiske aspekter	74
7 Organisation	80
8 Økonomi	126
9 Samlede resultater	149
Referencer	155
Bilag	162

Resumé

I dette resumé præsenteres resultater fra medicinsk teknologivurdering (MTV) af respiratorbehandling i eget hjem. Respiratorbehandling (HMTV – Home Mechanical Ventilation) omfatter både invasiv og non-invasiv behandling hos en patientgruppe med behov for respiratorisk overvågning hele døgnet eller det meste af døgnet. På foranledning af Sundhedsdirektørkredsen i Danske Regioner har DEFACTUM, Region Midtjylland, i tæt samarbejde med regionerne og Danske Regioner udarbejdet denne MTV. Det er MTV'ens primære formål at vurdere, hvordan de rette forudsætninger kan etableres, for at respiratorbehandling i eget hjem (med overvågning) tilbydes de rette patienter, samt hvorledes visitation, igangsættelse og tilrettelæggelse af respiratorbehandling i eget hjem mest hensigtsmæssigt kan organiseres. Afsættet for MTV'en er, at der de seneste knap fem år er sket en vækst i brugen af HMTV i Danmark. I 2012 var der på landsplan 664 hjælperordninger mod 838 i 2016, svarende til en stigning på 26 %. Opgørelser viser at vækstforhold og antal brugere varierer mellem regionerne.

Nedenfor præsenteres rapportens hovedresultater struktureret inden for domæner med afsæt i EUnetHTA's Core Model.

- På baggrund af systematiske reviews og primære studier ses en nogenlunde konsistent fordel ved anvendelse af HMTV, såfremt patienten er i stand til at tolerere behandling (studier omhandler særligt non-invasiv behandling og i mindre omfang invasiv behandling med trakeostomi). Effekthorhold er vurderet i forhold til mortalitet, livskvalitet, hospitalisering og lungefunktion. Resultater stammer primært fra studier, hvor alternativet til HMTV-behandling reelt er ingen behandling, altså at patienten ikke modtager respirationsstøtte. Inden for visse patientgrupper, særligt patienter med svært reduceret eller ophørt vejrtrækning, er HMTV sædvanligvis eneste alternativ. Resultater vedrørende effekthorhold i relation til HMTV hviler på et meget svagt evidensgrundlag, hvilket til dels skyldes behandlingsområdets begrænsede muligheder for at opstille stærke studiedesigns, fx RCT. Det betyder, at tilliden til resultaterne generelt er meget lav.
- I forhold til risici ved HMTV tyder de fundne resultater på, at trakeostomipatienter oplever flere komplikationer end patienter med non-invasiv behandling. Sammenligneligheden mellem de to grupper er dog tvivlsom, og tilliden til resultatet er meget lav. Blandt børn, der behandles non-invasivt via maske, er beskrevet risici for hudskader og tryk/udfladning af ansigt. Igen hviler resultaterne på et meget begrænset evidensgrundlag. Der er kun fundet dokumentation for risici i meget begrænset omfang, og der vil være risici som ikke er belyst i denne del af undersøgelsen.
- På baggrund af et systematisk litteraturstudie af internationale, kvalitative studier er patient- og pårørendeperspektiver ved HMTV blevet afdækket. *Patienterne* beskriver respiratorbehandling som en livreddende foranstaltning, samtidig med at de også kan have vanskeligt ved at forlige sig med deres tilværelse med HMTV. Patienterne oplever på den ene side gradvist en følelse af kontrol med teknologien og på den anden side en fortsat usikkerhed, fordi de på grund af ændringer i deres helbredstilstand ofte skal tilpasse sig en ny situation. Det er afgørende for patienternes oplevelse af styrket livskvalitet ved HMTV, at behandlingen finder sted i hjemmet frem for i institutionelle rammer. I forhold til samarbejde med sundhedsprofessionelle og personlige hjælpere understreger patienterne vigtigheden af en tilgang, hvor de lyttes til og bliver mødt som 'hele personer' og samarbejdspartnere. *Pårø-*

rende (her primært til børn) beretter om en stressfyldt hverdag, hvor bekymring og angst for barnets fremtid 'fylder'. Det er en hverdag, som er præget af stram styring og alligevel stor uforudsigelighed. Forældrene giver også udtryk for, at tilstedeværelse af hjælpere i hjemmet kan være en belastning.

- Hvordan etiske dilemmaer i relation til brugen af HMV anskues og søges løst afhænger af, om det er patienter, professionelle eller politisk-administrativt ansvarlige, der tager stilling til forholdet (fx prioritering af, hvilke patienter, der kan visiteres til HMV). Dette stiller store krav til politisk ansvarlige om at gøre de etiske dilemmaer ved HMV til genstand for offentlig diskussion. En sådan diskussion kan bl.a. styrkes ved at inddrage erfaringer med håndtering af prioriteringsspørgsmål på sundhedsområdet (som fx den autoritet man i England har givet NICE (National Institute of Clinical Excellence) eller det norske prioriteringsinstitut 'Nye Metoder', samt danske erfaringer fra Medicinrådet). Diskussion om etik i relation til brug af HMV kan i længden ikke adskilles fra en sådan mere generel samfundsetisk diskussion og stillingtagen.
- Respiratorbehandlingen kostede i 2015 og 2016 henholdsvis 1,26 og 1,32 mia. kr. på landsplan svarende til en vækst på ca. 4 %. I gennemsnit kostede respiratorbehandlingen per patient 1,5 mio. kr. i 2016. Analysen viser, at i forhold til indlæggelse på en intensivafdeling, er HMV et bedre økonomisk alternativ. Der er variation i gennemsnitsomkostninger per patient mellem regionerne. Årsagerne hertil er ukendte, men mulige forklaringer kan være variation i fordelingen af ufaglærte/faglærte hjælpere i hjælperordninger, antal børnesager og forskelle i fordelingen af diagnoser mellem regionerne, samt ikke ensartede opgørelser i respirationscentrene og regionerne. Der er på landsplan observeret en stigning i både prævalens og incidens af HMV-patienter over en femårs periode. Den organisatoriske analyse har fremlagt forslag til mulige organisatoriske ændringer, som kan have potentielle ressourcemæssige konsekvenser for anvendelsen af HMV. Det har imidlertid ikke været muligt at kvantificere disse forslag, og der er fortsat behov for mere forskning og viden på området, så de organisatoriske/økonomiske konsekvenser ved HMV kan blive belyst. Det har ikke været muligt at basere den økonomiske analyse på registerdata grundet tidsrammen for projektet.
- Resultater fra organisationsanalysen viser, at der på respirationscentrene opleves et øget pres fra henvisende afdelinger i forhold til visitation til HMV. For dels at modvirke, at der langsomt sker et indikationsskred i patientgruppen, uden man eksplicit har taget stilling til, om indikationsskredet er hensigtsmæssigt og dels at sikre en større ensretning af praksis for henvisning til og igangsættelse af respiratorisk behandling, vurderes der således at være behov for politisk-administrativ opmærksomhed på at fastholde samt yderligere opdatere og præcisere beskrivelsen af målgruppen for HMV. Dette bør ske i samarbejde med de lægefaglige miljøer. Desuden findes et behov for at skærpe eksisterende nationale kriterier og retningslinjer for visitation, igangsættelse og tilrettelæggelse af behandling med inspiration fra foreliggende lokale og internationale kriterier og retningslinjer. Patientgruppens heterogenitet samt kompleksiteten i den samlede vurdering af patient og behandling skaber dog visse udfordringer ved at sætte kriterier for visitation og igangsættelse af behandling entydigt på formel. Angående henvisning til respirationscentrene vurderes der at være potentiale i at styrke dialogen mellem respirationscentrene og henvisende afdelinger forud for visitation af patienter, fx gennem etablering af ordninger med udgående læger fra respirationscentrene. Det er vigtigt, at igangsættelse af HMV baseres på forudgående systematisk dialog med patienterne, herunder at eventuelle palliative medicinske alternativer til respiratorbehandling diskuteres, hvor det er relevant. Med henblik på at imødekomme udfordrin-

ger med sen udskrivning fra intensivafdelingerne samt brug af dyre midlertidige aflastningspladser og vikarbureauer ses der desuden potentiale i tidligt at inddrage patientens hjemkommune ved etablering af HVM. Tidlig inddragelse af hjemkommunen giver desuden mulighed for tidlig forventningsafstemning med patienten, hvilket forventes at kunne mindske igangsættelsen af hjælperordninger, som på forhånd vurderes at være udfordrende (uhensigtsmæssige) og dermed omkostningstunge. Med henblik på at imødekomme aktuelle udfordringer forbundet med hyppig udskiftning i hjælperordninger vurderes der et betydeligt potentiale i lokalt og på politisk-administrativt niveau at skabe bedre rammer for og regulering af hjælperordninger. Dette såvel i et økonomisk perspektiv som med henblik på at sikre en høj behandlingskvalitet.

Summary

This Health Technology Assessment (HTA) concerns the use of home mechanical ventilation (HMV). The HTA has been produced at the request of the Health Directors in the five Danish regions. The main purpose of the HTA is to assess how optimal conditions can be established for offering HMV, and to assess how visitation, initiation and preparation of HMV is organised most optimal. The purpose is investigated and evaluated in relation to six main areas: effectiveness, risks, patient and relative perspectives, ethics, organisational perspectives and health economics. The main findings in the report are:

Organisational perspective

The results show a need for political-administrative attention to an updated and specified description of the target group of HMV. This should be done in collaboration with relevant medical communities. This administrative attention is essential to support purposive development of the therapeutic indication for HMV and to ensure consistency in clinical referral to initiation of HMV. In addition, there is a need to strengthen existing national criteria and guidelines for the initiation of HMV. These should be informed by current local and international criteria and guidelines. The heterogeneity of patients and the complexity in assessing patients complicate the formulation of precise criteria for visitation and initiation of HMV. Strengthening dialogue between respiratory centres and referring departments prior to referral may optimize and qualify decision-making. Furthermore, the results show the importance of ensuring that initiation of HMV is based on thorough and systematic dialogue with patients, including the discussion of palliative alternatives to respiratory treatment, if appropriate. This, in order to support coherent and meaningful patient trajectories and to ensure consistency in clinical practice. To counter challenges with late discharge, use of expensive temporary respite care sites and respiratory employment agencies, early involvement of patients' home municipalities in the establishment of HMV may hold great potential. In addition, early involvement of municipal staff can enable early matching of patient expectations in order to reduce initiation of challenging and costly patient courses. Finally, the results point to the need for and potential in reducing staff turnover in respiratory care teams and in improving work conditions in care teams, in order to support optimal quality and use of resources. These efforts require support from both local levels and from the political-administrative level.

Economic perspective

The amount of HMV patients in Denmark was 824 in 2015 and 832 in 2016 (664 HMV patients in 2012). Annual respiratory (HMV) treatment costs per were 1.26 billion DKK (2015) and 1.32 billion DKK (2016), which corresponds to a growth of approximately 4% (indexed on 2016 pricing year). On average, HMV treatment costs per patient were 1.5 million DKK in 2016. Significant variation in average treatment costs per patient is observed between the Danish regions, which may well be due to differences in included costs between the regions. Furthermore, there was considerable variation in the distribution of unskilled/skilled assistants in the respiratory teams between the regions. The results show that patients with muscular dystrophy other than ALS are the largest group of HMV users followed by ALS and para-/tetraplegia. Finally, an increase in both prevalence and incidence of HMV patients was observed.

Patient and relative perspectives

Based on a systematic literature review of international, qualitative studies patient and relative perspectives have been evaluated. Patients describe HMV as a life-saving treatment. Over time, patients get a sense of control of the technology, however they experience continued uncertainty due to adaptation to and difficulties in accepting their new lives with HMV. It is crucial for the patients that the treatment takes place in the home rather than in an institution. Regarding collaboration with health professionals and the respiratory team, patients emphasise the importance of a collaborative approach where patients are involved and met as individuals and coworkers. Parents (of affected children) report a stressful everyday life with concerns about the child's future. The everyday life is characterized by strict structure and detailed management alongside great unpredictability. The parents express that the presence of respiratory teams can be a burden. Despite the presence of helpers, the parents still feel responsible for the care of the child.

Ethics

Ethical dilemmas related to the use of HMV are considered and solved differently from the various positions taken by the patients, professionals and politically-administratively professionals. This diversity calls for politically initiated, public discussions of the ethical dilemmas related to HMV. Such discussions may be supported by involving international experience in managing health priority issues such as the authority in England given to NICE (National Institute of Clinical Excellence) or the Norwegian National Council for Priority Setting in the Health Care, 'Nye Metoder' (New Methods) and experiences from the Danish 'Medicinrådet' (The Danish Medicines Council). Discussion about ethics in relation to the use of HMV cannot be separated from a more general ethical discussion and positioning.

Effectiveness/Risk

Based on systematic reviews and primary studies, a fairly consistent benefit is observed in the use of HMV (results from studies particularly dealing with non-invasive treatment and, to a lesser degree, invasive tracheostomy treatment) if the patient is able to tolerate treatment. Effects are assessed in relation to mortality, quality of life, hospitalization and lung function. It should be pointed out that these results primarily concern patient groups where 'no treatment' is an actual alternative to HMV. Within certain patient groups, especially patients with very reduced or insufficient breathing, HMV is usually the only alternative. Results are based on a very weak evidence base and, consequently, our confidence in the results is generally very low. In relation to risk and the use of HMV, findings indicate that patients having a tracheostomy may experience more complications than patients treated non-invasively. However, the comparability between the two groups is questionable and the confidence in the result is very low. Among children treated non-invasively by mask risks of skin damage and pressure marks/flattening of the face are described. Again, results are based on a very limited evidence base. Only very limited documentation has been found for the description of risks, which means that this area is only partly described in the report.

Ordliste

Atelektase	Sammenfald og lufttomhed af et lungeafsnit opstået som følge af aflukning af luftveje.
ALS	Amyotrofisk lateralsklerose.
AGREE	Appraisal of Guidelines for Research & Evaluation. Tjekliste til vurdering af kliniske retningslinjer.
AMSTAR	A Measurement Tool to Assess Systematic Reviews. Tjekliste til vurdering af systematiske reviews.
Aspiration	Indånding eller optagelse af væske eller faste stoffer i lungerne.
Bias	Fejl eller skævheder kan medføre, at resultaterne af en videnskabelig undersøgelse afviger systematisk fra sandheden.
BiPAP	Bilevel Positive Airway Pressure. Respiratorstøttet vejtrækning med to forskellige lufttryk.
Bulbær lidelse/parese	Lammelse af de muskler, der får deres nerveforsyning fra den nederste del af hjernestammen (<i>bulbus</i>), med tale-, tygge-, synke- og evt. åndedrætsbesvær til følge.
Case-kontrol-studie	I case-kontrol-studiet er det primære udvælgelseskriterium en gruppe syge, hvis eksponeringsforhold sammenlignes med eksponeringsforholdene i den underliggende studiebase (kontrollerne).
CASP	Critical Appraisal Skills Programme. Tjekliste udviklet til vurdering af kvalitative studier.
Confounding	Forveksling, sammenblanding. Hvis to eksponeringer begge kan være årsag til en sygdom, og hvis de er indbyrdes associerede, kan der ske forveksling, fx ved at den ene eksponering fejlagtigt tilskrives hele den kausale effekt.
Cuff	Oppustelig ballon omkring spidsen af en luftvejskanyle - for at sikre at der ikke er passage omkring kanylen.
GRADE	The Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation. Værktøj til vurdering af evidens.
Granulom	Vævsforandring som en reaktion på et fremmedlegeme eller en infektion.
HMV	Home Mechanical Ventilation. Respiratorbehandling i eget hjem. Forkortelsen HMV benyttes gennem rapporten og omfatter både invasiv og non-invasiv behandling.
Invasiv	Om fysisk indgreb/indtrængen i kroppen (fx trakeostomi).
IQR	Interquartile range. IQR beskriver forskellen mellem det første og det tredje kvartil.
Kohortestudier	Også kaldet followupundersøgelser. Undersøger helbredsændringer i en kohorte (studiepopulation) gennem en periode. Followupundersøgelser kan være beskrivende, som i et prognosestudie, eller analytiske, som i et behandlingsforsøg. Eksperimentelle undersøgelser er altid followupstudier.

Kyfoskoliose	Rygskævhed med unormal krumning af rygsøjlen både forfra-bagtil og i sideplan.
Median	Den midterste værdi i fx et datasæt.
MND	Motor Neurone Disease (motorneuronsygdom). Degenerative sygdomme i rygmarg og hjerne. Rammer primært de nerveceller, der er specialiseret i motorisk funktion.
NIV	Non-invasiv ventilation.
OHS	Obesity Hypoventilation Syndrome (fedmerelateret hypoventilation).
PaCO ₂	Arterielt kuldioxidtryk.
PaO ₂	Arterielt ilttryk.
Pneumoni	Lungebetændelse.
Primærlitteratur	Artikler om originale videnskabelige studier, såsom randomiserede, kliniske forsøg og kohorteundersøgelser.
PROM	Patient Reported Outcome Measures (patientrapporterede effektmål)
RATS	1) Relevance of the study question; 2) Appropriateness of qualitative method; 3) Transparency of procedures; 4) Soundness of interpretive approach. Tjekliste udviklet til vurdering af kvalitative studier.
Respirationsinsufficiens	En tilstand, der optræder, når lungerne ikke er i stand til at opretholde normalt indhold af ilt og kuldioxid i blodet.
RCT	Randomized controlled trial. Randomiseret, kontrolleret forsøg.
RTD	Restrictive Thoracic Disease (vejrtrækningshæmmende lidelser i brystkassen).
Sekundærlitteratur	Videnskabelige og kritiske tekster der behandler andre kilder: MTV-rapporter, Cochrane-reviews og andre systematiske reviews, meta-analyser samt eventuelt kliniske retningslinjer.
Signifikans	Anvendes i sammenhæng med videnskabelige resultater, som kan siges at være signifikante, hvis den statistiske test indikerer, at det er usandsynligt, at resultater er opstået alene ved et tilfælde. Et fund kan godt være statistisk signifikant og dog blive vurderet som klinisk ikke-signifikant, hvis betydningen er uvæsentlig.
Standarddeviation	Standardafvigelse, spredning.
Tracheitis	Betændelse i luftrøret.
Trakeostomi	Blivende tildannet operativ åbning i den forreste væg af trachea (luftrøret) hvori der indsættes kanyler (til vejrtrækning).
Validitet	Gyldighed. Der skelnes mellem intern og ekstern validitet. Intern validitet berører bias i forhold til målpopulationen, mens ekstern validitet beskriver generaliserbarheden/overførbarheden over for målpopulationen.
Vitalkapaciteten (VC)	Den maksimale mængde luft, der kan udåndes efter en maksimal indånding.

1 Introduktion

Sundhedsdirektørkredsen i Danske Regioner har foranlediget igangsætning af en ny medicinsk teknologivurdering (MTV) om respiratorbehandling af patienter i eget hjem. I MTV'en beskrives relevante forudsætninger og konsekvenser ved respiratorbehandling i eget hjem. I denne rapport anvendes forkortelsen HMV (Home Mechanical Ventilation) for respiratorbehandling i eget hjem. HMV omfatter både invasiv og non-invasiv behandling.

DEFACTUM, Region Midtjylland har været projektudfører på rapporten og har i tæt samarbejde de øvrige regioner og Danske Regioner udstukket rammerne for projektarbejdet. Projektet er udarbejdet under tæt sparring med den faglige projektgruppe. Derudover har en følgegruppe bestående af relevante faglige selskaber, patientforeninger og andre relevante interessenter givet faglige input til protokollen og til første rapportudkast. Målgruppen for projektet er sundhedsplanlæggere, sygehusledelser, politikere, beslutningstagere på alle niveauer samt fagprofessionelle og faglige organisationer.

2 Baggrund

2.1 Formålet med langvarig behandling med respirator

Kronisk respirationsinsufficiens omfatter en række tilstande, hvor der forekommer utilstrækkelig udskiftning af luft i lungerne enten hele døgnet eller dele af døgnet, oftest om natten (1). Årsagerne til den utilstrækkelige ventilering kan fx være svaghed i vejrtrækningsmusklerne, forstyrrelser i nervesystemets overføring af signaler eller forandringer i selve lungerne (1). I mange tilfælde udvikler respirationsinsufficiens sig gradvist, mens der undertiden opstår akut respirationssvigt fx i forbindelse med et traume, hvor patienten pådrager sig en rygmarvsskade øverst i nakken. Respirationsinsufficiens som er opstået gradvist debuterer ofte med diffuse symptomer såsom slaphed, vægtændring, morgenhovedpine, søvnproblemer og nedsat kognitiv funktion. Senere i forløbet vil der optræde symptomer som hurtig overfladisk vejrtrækning, væskephobninger og reduceret hostekraft (1).

Respiratorbehandling har til formål at sikre stabil ventilering af lungerne og stabil tilførsel af ilt til blodet. Iltoptaget i lungekapillærerne forbedres og samtidig forbedres udluftningen ved at CO₂ fjernes mere effektivt. Respiratorbehandling kan anvendes hele døgnet eller dele af døgnet efter behov (2).

2.2 HMV i et historisk perspektiv

Muligheden for at kunne tilbyde respiratorbehandling har eksisteret siden 1940'erne, hvor patienter med senfølger efter polio blev sendt hjem med mekanisk ventilationsstøtte i op til 24 timer i døgnet. Den tids respiratorer bestod af en stor metalcylinder kaldet jernlungen, som omsluttede patientens krop op til halsen. Jernlungen sørgede for at udvide brystvæggen og derved sænke mellemgulvet, hvorved der opstod undertryk inde i brystkassen. Undertrykket bevirkede, at luften strømmede ind i lungerne og når trykket i jernlungen normaliseredes sank brystkassen sammen og luften strømmede ud af lungerne (3). I 1950'erne blev en ny form for respiratorbehandling, kaldet overtryksventilatorer, udviklet. Ved overtryksbehandling føres luft med højt tryk ned i patientens lunger. Luften tilføres direkte ind i luftrøret gennem en kanyler i

halsen. Overtryksventilering har mange åbenlyse fordele frem for undertryksbehandling, blandt andet i form af en større bevægelsesfrihed for patienten, og er i dag den teknik der benyttes ved respiratorbehandling. Apparatur og metoder til overtryksventilering er blevet udviklet gennem tiden og omfatter i dag en række forskellige teknikker (4,5).

I dag findes der forskellige teknikker, som kan anvendes ved mekanisk ventilation uden for sygehuset. Ventilationen kan gives med en forhåndsbestemt frekvens (kontrolleret ventilation), ved at apparatet "trigges" af patienten selv (assisteret ventilation), eventuelt i kombination med at der indstilles et minimum antal åndedræt per minut, hvor ventilatoren supplerer med et ekstra åndedræt ved behov. Derudover kan man vælge at give et forhåndsdefineret volumen af luft ved hver indånding (volumenkontrolleret modus) eller at ventilere ved et forhåndsdefineret lufttryk (trykkontrolleret modus). Respiratorer er normalt udstyret med alarmer, som advarer hvis patienten ikke ventileres i overensstemmelse med de forhåndsdefinerede indstillinger (4). Respiratorbehandling kan foregå invasivt via en kanyler (trakeostomi) eller non-invasivt, hvor respiratoren er tilkoblet via en maske, som dækker patientens næse og mund eller via et mundstykke (2). Den hyppigste form for non-invasiv ventilering (NIV) er BiPAP (Bilevel Positive Airway Pressure). Udover BiPAP anvendes i visse tilfælde en anden form for maskebehandling kaldet CPAP (Continuous Positive Airway Pressure). Disse to former for maskebehandling adskiller sig overordnet ved, at der ved CPAP er et konstant forhøjet lufttryk ved indånding og udånding, mens der ved BiPAP gives et højere lufttryk under indånding end under udånding.

Det er vigtigt at bemærke, at modenhed og udbredelse af HMV afhænger af patientgruppen. Blandt rygmarvsskadede patienter er HMV således langt mere etableret og afprøvet end det eksempelvis ses hos ALS-patienter, hvor erfaringsgrundlaget for anvendelse af teknologien er mere begrænset. Disse forhold spiller ind i den videre beslutningstagning omkring brug af HMV.

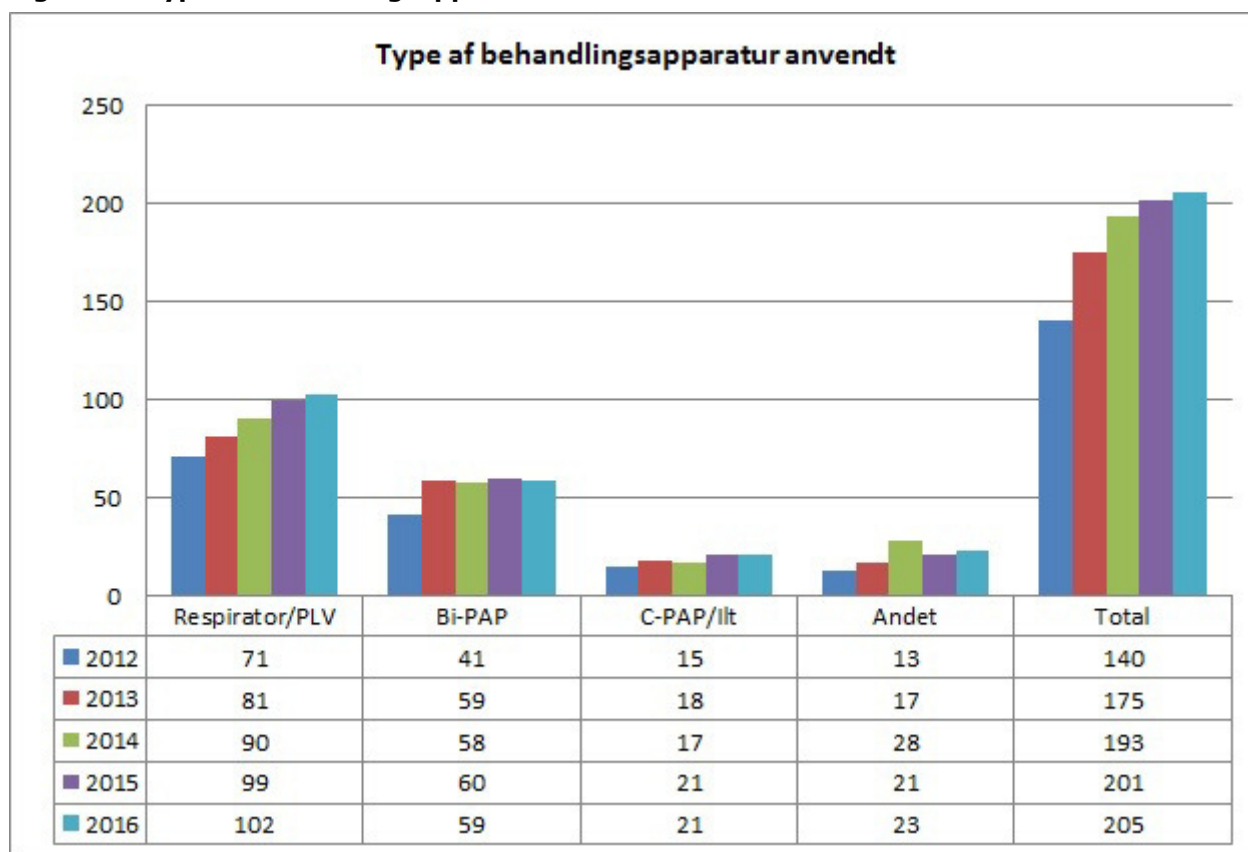
2.3 HMV i Danmark

I Danmark varetages håndteringen af patienter med kronisk respirationsinsufficiens af tre højt specialiserede respirationscentre: Respirationscenter Øst (RCØ) ved Rigshospitalet, Respirationscenter Vest (RCV) ved Aarhus Universitetshospital og Respirationscenter Syd (RCS) ved Odense Universitetshospital i formaliseret samarbejde med RCØ. Respirationscentrenes opgave er overordnet at tage stilling til og varetage (ansvaret for) den langvarige/permanente behandling af kronisk respirationsinsufficiens hos patienter på centret og i hjemmet. Målsætningen med respirationscentrenes indsats er at medvirke til, at patienterne kan opnå bedst mulig livskvalitet og rehabilitering, således at den videre respiratorbehandling kan foregå i eget hjem (undtagelsesvis evt. plejehjem), og at patienterne ikke skal være indlagte på et sygehus resten af livet. Det er endvidere en målsætning, at diagnostik, behandling og kontrol skal være af høj kvalitet, både på centrene og når respiratorbehandlingen ydes i hjemmet og i alle faser af et sygdomsforløb, ligesom indsatserne skal kunne leveres på relevant tidspunkt i sygdomsforløbet (6).

Patienter med kronisk respirationsinsufficiens er en heterogen gruppe, som omfatter mange forskellige diagnoser og forskellige behandlingsbehov. Derudover er der ligeledes stor variation i patienternes overlevelse, der varierer fra ca. 1-5 år for patienter med amyotrofisk lateralsklerose (ALS) til over 20 år for en række neuromuskulære lidelser (6), samt patienter med rygmærskade, hvor prognosen i forhold til overlevelse ligger lidt lavere end baggrundsbefolkningens.

Hovedparten af patientgruppen har som baggrund for vejrtrækningsproblemerne en tilgrundliggende sygdom fra det neurologiske område, fx muskelsvindsygdomme eller højtsiddende lammelser, opstået på baggrund af rygmærskade ved ulykke eller som følge af sygdom. Patienterne har ofte ud over de respiratoriske problemer svære fysiske handicap, som medfører, at de er afhængige af hjælp fra pårørende eller et hjælperhold (6). Patientgruppen spænder mellem patienter, som anvender non-invasiv respiratorbehandling - fx BiPAP få timer i døgnet, til patienter som anvender invasiv respiratorbehandling det meste af eller hele døgnet, og som er afhængige af døgnovervågning i form af et hjælperhold. I denne MTV fokuseres der på den del af patientgruppen med kronisk respirationsinsufficiens, som har tilknyttet et hjælperhold det meste eller hele døgnet. I figur 2.1 ses fordelingen af respirationsapparat fra Region Midtjylland for de patienter, som har en hjælperordning. Af figuren fremgår det, at ca. 50 % af patienterne modtager invasiv respiratorbehandling, mens ca. 30 % af patienterne anvender non-invasiv behandling i form af BiPAP. Ca. 10 % af patienterne modtager CPAP, og de resterende 10 % er patienter, der har fået anlagt trakeostomi, men ikke er tilkoblet en respirator. Formålet med trakeostomi er hos disse patienter at sikre frie luftveje og/eller at undgå fejlsynkning.

Figur 2.1. Type af behandlingsapparat anvendt



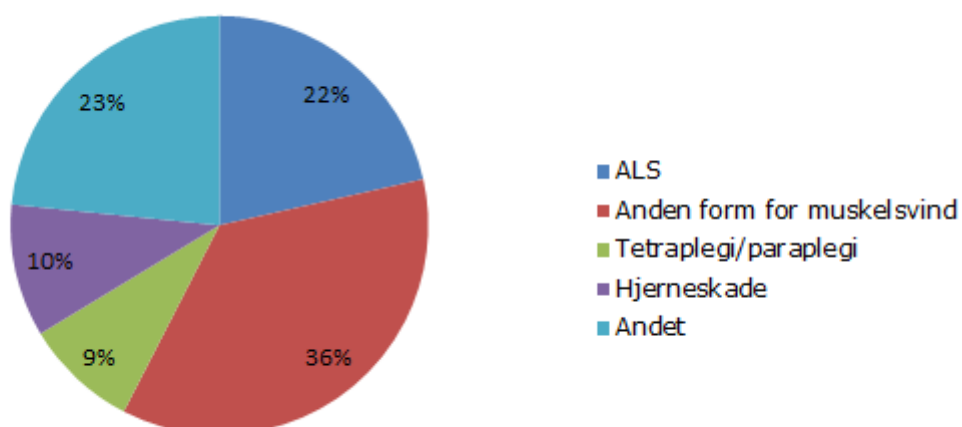
Kilde: Redegørelse for årsresultatet 2016 på Hjemmerespirationsområdet, Region Midtjylland.

2.3.1 Brugere af HMV

De bagvedliggende sygdomme, som kan føre til behov for HMV, kan overordnet inddeles i fem hovedkategorier: neuromuskulære lidelser, svigt i den centrale respirationsregulering, brystvægslidelser, fedmerelateret hypoventilationssyndrom og lungesygdom. Inden for hver af de fem kategorier kan der eksistere mange forskellige diagnoser med varierende sygdomsmekanismer og prognoser (1).

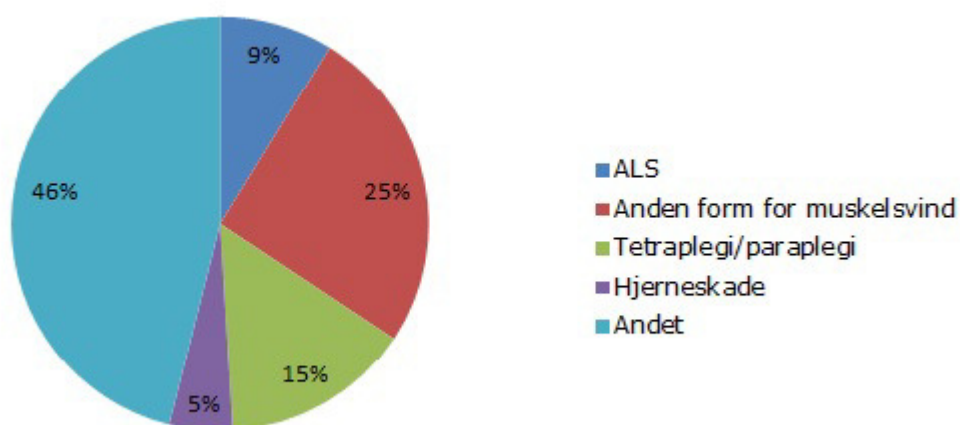
I figurerne nedenfor ses en oversigt over hjemmerespiratorbrugere med hjælperordninger fordelt på udvalgte diagnoser på henholdsvis RCV (tal fra 2016), RCØ (tal fra 2014) og RCS (alle aktive patienter med hjælperhold i april 2017). Figurerne illustrerer, at der er en væsentlig forskel på patientfordelingen, hvor RCS procentmæssigt har registreret markant flere patienter med ALS og hjerneskade end de to andre respirationscentre. Derimod er den procentmæssige forekomst af para-/tetraplegipatienter højere på RCØ og ligeledes andelen af patienter i kategorien *andet* sammenlignet med de to andre respirationscentre. Det er her vigtigt at være opmærksom på, at der kan forekomme forskellige måder at opgøre kategorierne *andet* og *anden form for muskelsvind* på, hvilket muligvis kan være en forklaring på den procentmæssigt højere forekomst af anden form for muskelsvind på RCV og den høje andel under kategorien *andet* på RCØ. Yderligere er data gældende for forskellige år samt for RCS for alle aktive patienter.

Figur 2.2. Patientfordeling på Respirationscenter Vest* (N=205 patienter)

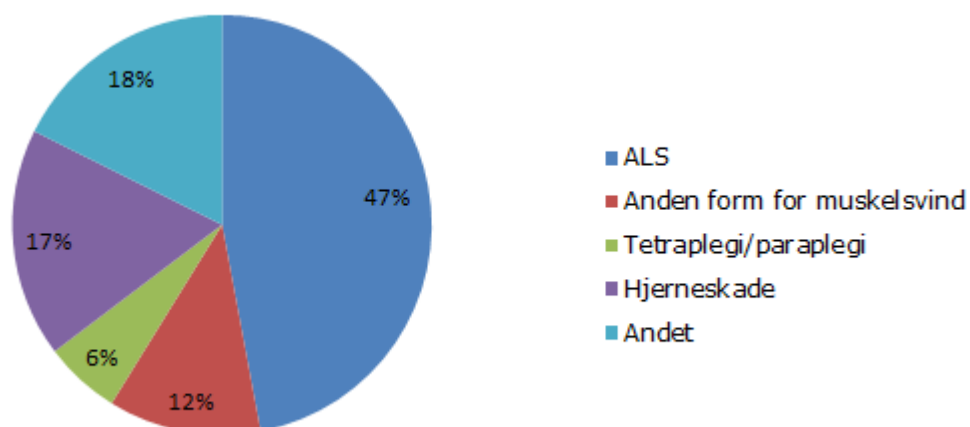


* Fordelingen er baseret på tal fra Region Midtjylland

Figur 2.3. Patientfordelingen på Respirationscenter Øst (N=328 patienter)



Figur 2.4. Patientfordeling på Respirationscenter Syd (N=51 patienter)



I det følgende gives en kort præsentation af de hyppigste årsager til respirationsinsufficiens. Generelt oplever respirationscentrene et øget pres på kapaciteten og efterspørgslen efter behandling fra de henvisende afdelinger, hvilket blandt andet kan tilskrives en udvidelse i patientgruppen. Det drejer sig om patienter med fx fedmerelateret hypoventilation, lunge-sygdomme (herunder KOL) samt børn med cancer, der nu i højere grad bliver henvist til respirationscentrene grundet respirationsinsufficiens. På nuværende tidspunkt har disse patientgrupper overordnet set ikke brug for et hjælperhold, hvorfor de ikke er omfattet af denne MTV og ikke indgår i nedenstående præsentation.

Neuromuskulære sygdomme

Neuromuskulære sygdomme er en fællesbetegnelse for en række degenerative sygdomme, der rammer de perifere nerver, den neuromuskulære overgang og/eller muskelfibre. Samtidig dækker neuromuskulære sygdomme over hundredvis af forskellige diagnoser, som dog hver især forekommer relativt sjældent. Prævalensen for neuromuskulære sygdomme er ca. 2 % (7).

Amyotrofisk lateralsklerose (ALS)

Amyotrofisk lateralsklerose bedre kendt som ALS er en neurodegenerativ sygdom, hvor de øvre motoriske nerver, der kommer fra hjernen og hjernestammen, og de nedre motoriske nerver, der kommer fra den forlængede rygmarv, gradvist nedbrydes. Dette resulterer i, at kroppens muskler langsomt bliver mindre og svagere. Sygdommen kan gå i arv, men i 90-95 % af tilfældene er årsagen ukendt (8). ALS præsenterer sig oftest med symptomer som asymmetrisk svaghed i ekstremiteterne, men hos omkring 20 % af patienterne kan sygdommen debutere med taleforstyrrelser (dysartri) eller synkebesvær (dysfagi), hvilket er tegn på lammelse i hjernestammen (bulbær parese) (9). Typisk mister patienter med ALS gradvist deres selvstændighed og får et øget behov for hjælp til de daglige aktiviteter. Efterhånden som sygdommen udvikler sig vil også vejrtrækningsmusklerne rammes og respirationssvigt er den hyppigste årsag til tidlig død hos patienter med ALS. Respirationssvigt vil forekomme på forskellige tidspunkter i sygdomsforløbet, men i gennemsnit har en ubehandlet ALS-patient en overlevelse på to til fem år (10,11).

Duchennes muskeldystrofi

Duchennes muskeldystrofi er den alvorligste form for muskelsvind, som medfører tidlig invaliditet og død. Sygdommen skyldes en defekt i dannelsen af proteinet dystrofin, hvilket medfører muskelsvækkelse. Sygdommen nedarves fra mor til søn gennem moderens ene X-kromosom, og kun drenge kan få denne sygdom. De kliniske symptomer på muskelsvaghed opstår typisk i 2-3-årsalderen. Personer med Duchennes muskeldystrofi er ofte kørestolsbrugere fra 12-årsalderen og dør i slutningen af teenageårene eller i starten af 20'erne på grund af respirationsinsufficiens eller kardiomyopati (svaghed i hjertemuskulaturen) (12).

Rygmarvsskade

En rygmarvsskade indebærer, at nerverne i rygmarvskanalen, der forbinder hjernen med kroppen, er beskadigede. Dette kan være sygdomsbetinget (ca. 60 %) eller forårsaget af et traume

(ca. 40 %) (6). Såfremt skaden er lokaliseret højt i halsrygmarven, kan dette foranledige kronisk respiratorinsufficiens. Derudover kan skader placeret lavere på halsrygmarven og på øvre del af brysthvirvelsøjlen ligeledes medføre akut behov for respirationsstøtte, som dog ikke nødvendigvis er kronisk (1). Der er en klar sammenhæng mellem lungefunktionen og rygmarvsskadeniveauet.

Hjerneskade

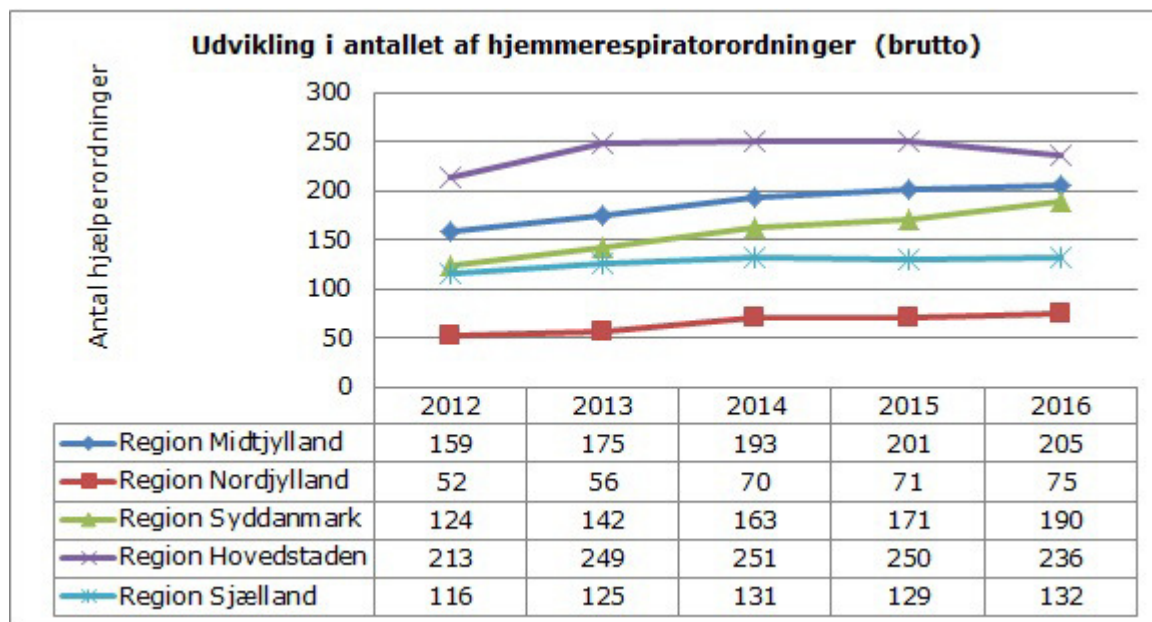
Hjerneskade kan opdeles i erhvervet og medfødt hjerneskade, hvor erhvervet hjerneskade kan opstå som følge af blandt andet slag mod hovedet, blodprop/blødning i hjernen, infektion eller betændelse i hjernen. Medfødt hjerneskade kan blandt andet være forårsaget af iltmangel ved fødslen, sygdomme hos moderen eller misbrug under graviditeten. Hjerneskader er meget forskellige og kan dermed have forskellige konsekvenser for patienten. Nogle af de hyppigste følger virkninger er intellektuelle forstyrrelser, personlighedsændringer, kommunikationsvanskeligheder og bevægelsesindskrænkninger. Over 120.000 mennesker lever med en hjerneskade i Danmark (13).

Udviklingen i antallet af hjemmerespiratorordninger i Danmark

I Danmark er der i de senere år observeret en betydelig vækst i antallet af respiratorbrugere i eget hjem og i antallet af hjælperordninger til patienter med hjemmerespirator. I 2012 var der på landsplan 664 hjælperordninger mod 838 i 2016, svarende til en stigning på 26 % på fire år (bruttototal). Udviklingen i antallet af respiratorordninger (patienter) kan opgøres **brutto** eller **netto**. **Netto** er det antal aktive patienter, dvs. ekskl. døde og ophørte, der præcist er ved årets udgang, mens **Brutto** defineres som det totale antal patienter inkl. døde og ophørte, som har påvirket budgettet det pågældende regnskabsår. I den følgende præsentation af udviklingen i antallet af respiratorordninger i de fem regioner anvendes bruttototal, idet dette giver et mere retvisende billede af aktiviteten på respirationscentrene over et helt år frem for blot et øjebliksbillede.

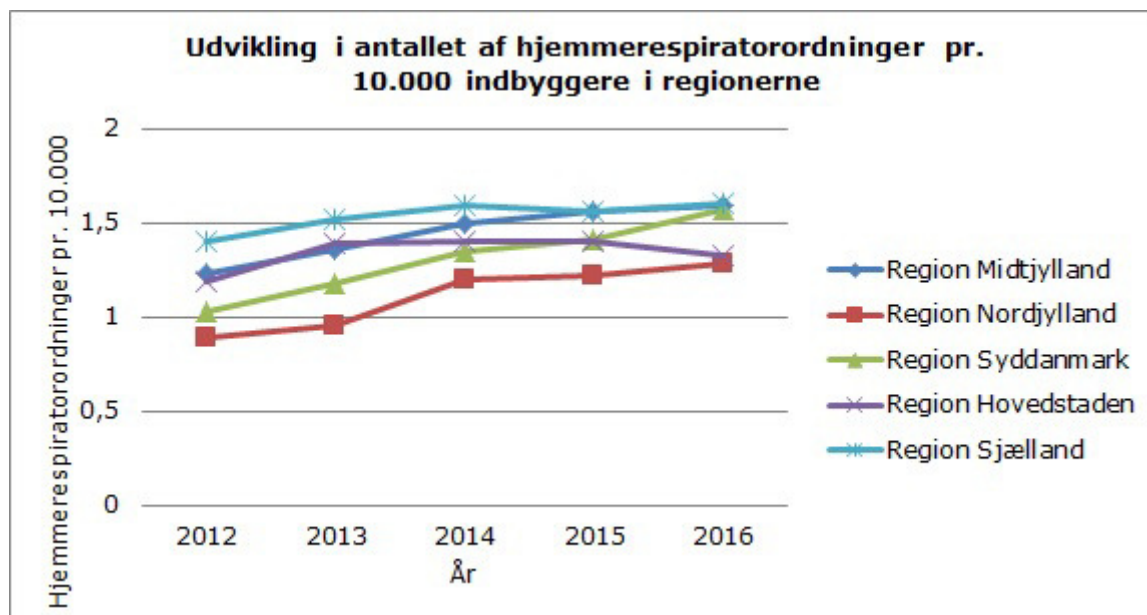
I figur 2.5 ses en oversigt over udviklingen i antallet af bruttohjelperordninger fordelt i de fem regioner fra 2012 til 2016. Af figuren fremgår det, at Region Hovedstaden med 236 hjælperordninger i 2016 havde det højeste absolutte antal af bruttoordninger, mens Region Nordjylland med 75 hjælperordninger havde færrest. Den største relative vækst i antallet af hjælperordninger ses i Region Syddanmark, Region Nordjylland og Region Midtjylland, hvor der er sket en stigning på henholdsvis 53 %, 44 % og 29 % i perioden 2012-2016. I Region Hovedstaden og Region Sjælland har der i samme periode været en mindre stigning på henholdsvis 11 % og 14 %.

Figur 2.5. Udvikling i antal hjemmerespiratorordninger i de fem regioner



I figur 2.6 ses antallet af bruttoordninger for de fem regioner, når der er justeret for indbyggerantal. Her ses det, at prævalensen af hjælperordninger i Region Sjælland, Region Midtjylland og Region Syddanmark nærmer sig hinanden. Til trods for at der er sket en relativt stor stigning i antallet af hjælperordninger i Region Nordjylland i perioden 2012 til 2016, er antallet af hjælperordninger stadig lavere end Region Midtjylland, Nordjylland og Syddanmark, når der er justeret for indbyggerantal. Den forholdsvis lille stigning i antallet af hjælperordninger, der er observeret i Region Hovedstaden i perioden, har betydet, at Region Hovedstaden i 2016 ligger på niveau med Region Nordjylland, når der er justeret for antallet af indbyggere i regionerne. Sammenligning med andre landes brug af hjemmerespiratorordninger kompliceres af flere forhold. Det er et problem, at det sædvanligvis ikke vides, om opgørelser er baseret på brutto eller netttotal. Derudover er visitationskriterier ofte meget uensartede og geografien spiller inden for de nordiske lande også en stor rolle. Disse opgørelser synes derfor ikke relevante i denne sammenhæng.

Figur 2.6. Udviklingen i antal hjemmerespiratorordninger justeret for indbyggerantal



Hvad der forårsager den betydelige vækst i antallet af hjælperordninger og variationen i væksten mellem regionerne er langt hen ad vejen uklart. Omkostninger til respiratorbrugere i hjemmet varierer men er meget høje, og omkostninger til et enkelt hjælperteam kan løbe op i flere millioner kroner på årsbasis. De regionale udgifter til respirationshjælp i hjemmet beløb sig i 2016 til cirka 1,3 mia. kr. årligt, og derudover er der udgifter efter serviceloven til borgere med respirationshjælp. Dertil er visitationskriterier og effektforhold ved anvendelse af HVM i Danmark sparsomt belyst.

2.4 Afgrænsning

HVM (med overvågning) er et meget alsidigt og komplekst behandlingsområde i sundhedsvæsenet, og samtidig et område der benyttes inden for en meget afgrænset patientgruppe. På baggrund af ovenstående findes det relevant at få afdækket visitationskriterier samt at få vurderet, hvorledes man organisatorisk kan skabe de mest hensigtsmæssige forudsætninger i forbindelse med planlægning af et forløb med HVM, jf. Specialevejledning for anæstesiologi¹. Kliniske effektforhold samt risici ved HVM ønskes undersøgt, og etiske dilemmaer og udfordringer ved HVM ønskes belyst. Forhold som patientens autonomi og værdighed og viden om patienters ønsker og erfaringer med HVM er derfor vigtigt at få afdækket. Endvidere er det relevant at få de sundhedsøkonomiske konsekvenser belyst. Samlet vil dette kunne bidrage til fremtidige beslutninger om hensigtsmæssig anvendelse af HVM i Danmark. Projektets rammesætning muliggør afdækning af udvalgte men centrale dele af, og herunder et opdateret evidensgrundlag, men der vil være perspektiver, som ikke bliver belyst inden for disse rammer.

¹ Specialevejledning for anæstesiologi. available at: <https://www.sst.dk/>.

2.5 Formål

Det er MTV'ens overordnede formål at vurdere, hvordan de rette forudsætninger skabes, for at respiratorbehandling i eget hjem (HMV) tilbydes de rette patienter. Desuden ønskes det undersøgt, hvorledes visitation, igangsættelse og tilrettelæggelse af HMV bedst kan organiseres, samt hvilke effekter og hvilke omkostninger HMV medfører. Mere specifikt belyses således i MTV'en visitationskriterier nationalt og internationalt for anvendelse af HMV samt national henvisningspraksis og organisering af igangsættelse og tilrettelæggelse af HMV. Endvidere identificeres organisatoriske udfordringer og muligheder i henvisningspraksis og organisering, og perspektiver i forhold til fremadrettet organisering af visitation, igangsættelse og tilrettelæggelse af behandling belyses. Kliniske effektforhold ved HMV-behandling undersøges over for relevante alternativer, og overordnede patientrelaterede og etiske konsekvenser klarlægges. Endelig undersøges omkostningseffektiviteten ved HMV-behandling over for relevante alternative behandlinger/måder at organisere forløbet på med henblik på hensigtsmæssig udnyttelse af ressourcer.

Patientgruppen for MTV'en er vanskelig at afgrænse² men inkluderer udvalgte og relevante patienter/patientgrupper med kronisk respirationsinsufficiens med behov for invasiv eller non-invasiv HMV. Der afgrænses til patienter med behov for døgnovervågning eller overvågning i en betydelig del af døgnet. Der fokuseres i rapporten på områder, som har særlig betydning i forhold til mere overordnede beslutninger vedrørende udvikling inden for og anvendelse af HMV. Rapportens resultater præsenteres blandt andet gennem et opdateret videns-/evidensgrundlag. Rapporten berører som udgangspunkt ikke behandling på sygehus og således heller ikke behandling i forbindelse med intensivforløb.

2.6 Analysespørgsmål

Under kapitlerne er opstillet analysespørgsmål som rapporten tager afsæt i. De fokuserede analysespørgsmål tager udgangspunkt i prædefinerede, generiske domænespørgsmål fra EUnetHTA's HTA Core Model³. Analysespørgsmål er tilpasset ved hjælp af PICO-strukturen jf. tabel 2.1. De seks domæner/kapitler er:

- Effektforhold
- Risici
- Patientrelaterede konsekvenser
- Etiske konsekvenser
- Organisation
- Økonomi

² Kronisk respirationsinsufficiens vedrørende visitation og sygehusbehandling af patienter, som lider af kronisk respirationsinsufficiens som følge af neuromuskulære lidelser, thoraxdeformiteter m.m. Ministeriet for Sundhed og Forebyggelse. 1990.

³ <http://eunethta.eu/sites/5026.fedimbo.belgium.be/files/HTACoreModel3.0.pdf>

Denne tilgang er med til at sikre afdækning af alle relevante problematikker og emner i forhold til de beskrevne udfordringer ved brug af HMV. Domænerne afspejler kompleksiteten i vurderingen af nærværende teknologi, og tilgangen understøtter en kritisk, transparent og systematisk vurdering af relevante forhold med relation til anvendelse af HMV.

2.7 Overordnet metode

Den overordnede ramme for udarbejdelse af rapporten samt besvarelse af analysespørgsmål tager afsæt i EUnetHTA's HTA Core Model. Således struktureres rapporten og projektet ud fra de seks domæner med tilhørende delområder og analysespørgsmål jf. ovenstående. Detaljeret metode beskrives under hvert domæne.

Metodisk benyttes systematisk litteraturgennemgang, primær dataindsamling via kvalitativ interviewundersøgelse samt indhentning af aggregerede, statistiske data og forbrugsdata på patientgruppen samt økonomiske nøgletal. Nedenfor beskrives den overordnede systematiske litteratursøgning. Udvælgelse og kvalitetsvurdering af referencer beskrives under de enkelte kapitler.

Tabel 2.1. Scoping - PICO

Population	Patientgruppen inkluderer udvalgte og relevante patienter/patientgrupper med kronisk respirationsinsufficiens med behov for invasiv eller non-invasiv respiratorbehandling i eget hjem (HMV). Der afgrænses til patienter med behov for døgnovervågning eller overvågning i en betydelig del af døgnet. De fire største patientgrupper er ALS-patienter, patienter med muskelsvindlidelser, rygmarvsskadede patienter og patienter med erhvervet hjerneskade.
Intervention	Respiratorbehandling i eget hjem. Der afgrænses til patienter med behov for døgnovervågning eller overvågning i en betydelig del af døgnet. Behandling inkluderer non-invasiv (NIV) og invasiv behandling.
Sammenligningsgrundlag (comparison)	Respiratorbehandling i eget hjem sammenholdes med relevante alternativer /tilgange til behandling af patientgruppen, hvilket inkluderer forskellige måder at organisere behandlingen på. Andre alternativer er fx palliativ behandling.
Effektmål (outcome)	De kliniske effektmål, der vurderes i projektet, er: Mortalitet, morbiditet (symptomer og bivirkninger) og helbredsrelateret livskvalitet. Andre effektmål knytter sig til organisering og økonomiske konsekvenser. Grundet omfanget af effektmål medtages effekter som dyspnø, hovedpine og træthed ikke.

2.8 Litteratursøgning

Den systematiske litteratursøgning har været meget omfattende og tilvejebringer studier til alle domæner. I bilag 1 er vedlagt overordnet søgestrategi. Søgeprocessen er gennemført i samarbejde med AU Library, Aarhus Universitet. Således er der med udgangspunkt i de fokuserede spørgsmål udarbejdet en søgestrategi, hvor de forskellige databaser kræver hver sin søgestrategi. Der anvendes typisk kontrollerede emneord (MeSH-termer) for at sikre at alle relevante studier indfanges. Fordelen herved er, at man også oftest opsnapper studier, som anvender andre termer for det, man selv søger på.

Litteraturgennemgangen inkluderer nationale/internationale studier inden for området. Der er søgt kvalitative forskningsstudier, case-kontrol-studier, kohortestudier, RCT-studier og systematiske reviews (herunder Cochrane-reviews, evidensbaserede retningslinjer og MTV-rapporter). Detaljerede søgestrategier opbevares som dokumentation. Specifikke kriterier for søgninger fremgår af søgeprotokollen (bilag 1).

Der er søgt litteratur i følgende databaser og informationskilder: den engelske HTA-database, den danske og svenske MTV-database, INAHTA, HTAi, G-I-N, EUnetHTA's POP-database, Medline, Embase, Cinahl, PsycINFO, JSTOR, Social Services Abstracts, Sociological Abstracts og Web of Science. Der er søgt litteratur 10 år tilbage. Der er søgt efter studier skrevet på engelsk, dansk, svensk eller norsk med alle aldersgrupper inkluderet.

Med henblik på at sikre indsamling af alle relevante studier er der gennemført kvalitetssikring af søgeprocesserne via AU Library, Aarhus Universitet og projektgruppen.

2.8.1 Inklusionskriterier (PICO)

I undersøgelsen inkluderedes, jf. tabel 2.1, studier vedrørende HVM sammenlignet med effekten af relevante alternativer. Patientgruppen omfatter relevante patienter/patientgrupper med kronisk respirationsinsufficiens med behov for invasiv eller non-invasiv HVM. Der afgrænses til patienter med behov for døgnovervågning eller overvågning i en betydelig del af døgnet.

2.8.2 Eksklusionskriterier

Projektets formål er meget alsidigt, særligt hvad angår patientgruppen, men også i forhold til de forskellige problemstillinger der ønskes belyst. Følgende eksklusionskriterier er opstillet:

- Studier publiceret før 2006.
- Ikke relevant patientgruppe, fx: patienter med søvnlidelser, centralt hypoventilationsyndrom, Fedmerelateret hypoventilationssyndrom, tuberkulose, patienter med arm-/kropsfunktion, KOL-patienter.
- Ikke-relevant intervention, fx: afvænningsstudier (weaning), hvis studiet omhandler overordnede problematikker (fx komplekse behandlingsbehov eller "technology dependant children" og ventilation ikke er nævnt), hvis studiet omhandler meget specielle teknikker, fugtere eller andet, 'home discharge'-studier medmindre studiet omhandler parametre for hurtig og let udskrivning eller er relevant i forhold til hensigtsmæssig udskrivningspraksis – hvad fordrer en god overflytning mellem afdelinger og hjem, patient/respirator 'asynkroni'-studier, apparatstudier, studier om operationsmetoder.
- Store forskelle i kontekst.
- Studier af dårlig metodologisk kvalitet ekskluderes. Kvalitetsvurdering gennemføres via tjeklister.

Alle identificerede referencer er importeret til referencehåndteringsværktøjet RefWorks. RefWorks er et webbaseret program, hvor man kan opbygge emneinddelte databaser over lit-

teratur-referencer. Programmet er velegnet til at skabe overblik over de identificerede referencer fra søgningerne. Efter at referencerne er importeret, er dubletter fjernet, hvorefter sortering af referencerne på domæner er foretaget. RefWorks anvendes til automatisk generering af litteraturlister.

2.8.3 Indsamling af data, kvalitetsvurdering og analyse

Udvælgelse og kvalitetsvurderinger af litteraturen er gennemført af to reviewere uafhængigt af hinanden. Kvaliteten af studier er vurderet via tjeklister tilpasset det konkrete studiedesign i form af Cochrane's 'Risk of bias tool'⁴ til vurdering af randomiserede studier og SIGN's tjeklister⁵ til vurdering af kohortestudier og case-kontrol-studier samt CASP⁶ og RATS⁷ til kvalitative studier. Til vurdering af systematiske reviews er AMSTAR's tjekliste⁸ benyttet, og til vurdering af kliniske retningslinjer er AGREE II⁹ benyttet. Ved ikke-randomiserede studier oplyses den overordnede metodiske kvalitet af de enkelte studier. Vurderingen af dette foretages ud fra SIGN-tjeklisterne, som benytter kategorierne ++, + og -. I fortolkningsøjemed benævnes kategorierne høj, moderat og meget lav/ikke acceptabel i indeværende studie. Det er almindeligt accepteret, at observationelle studier i højere grad er udsat for bias end RCT-studier. Retrospektive studier, med manglende mulighed for at patienterne kan gennemføre et protokolleret forløb, er ligeledes mere udsat for bias end prospektive studier. Dette medfører, at kvalitetsvurderingen af et retrospektivt studie højst kan vurderes som værende moderat. Ved besvarelse af undersøgelsesspørgsmål benyttes Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation (GRADE) til vurdering af evidensgrundlaget for den kvantitative litteratur for hvert enkelt af de vigtige effektmål¹⁰. GRADE forbeholdes studier, hvor der er et reelt sammenligningsgrundlag.

2.9 Projektorganisation

DEFACTUM har nedsat *projekt- og følgegruppe*, som har været med til at sikre og indlejre særligt det kliniske og patientmæssige fokus på HVM, men også politisk-administrative betragtninger i relation til brug og udbredelse af ordningen, jf. følgegruppens sammensætning.

Projektgruppen har afholdt seks møder, og der er afholdt et møde i følgegruppen, hvor første rapportudkast blev diskuteret.

Repræsentanter fra patientorganisationer er desuden tilbudt dels at kommentere på detaljerede analysespørgsmål (assessment elements), som udpeger de områder, der indgår i rapportens analyser, dels at foreslå andre klinisk relevante spørgsmål. Spørgsmålene er udvalgt

⁴ http://handbook.cochrane.org/chapter_8/8_5_the_cochrane_collaborations_tool_for_assessing_risk_of_bias.htm

⁵ <http://www.sign.ac.uk/methodology/checklists.html>

⁶ <http://www.casp-uk.net/casp-tools-checklists>

⁷ http://bmjopen.bmj.com/content/suppl/2012/01/12/bmjopen-2011-000138.DC1/BMJ_Open_IMG_Physician_Migration_RATS_Checklist.pdf

⁸ https://amstar.ca/Amstar_Checklist.php

⁹ <http://www.agreetrust.org/agree-ii/>

¹⁰ <http://www.gradeworkinggroup.org/>

blandt en række gennemarbejdede generiske spørgsmål (jf. HTA core model¹¹) som er udarbejdet på europæisk plan, og disse er tilpasset det aktuelle projekt. Hvert domæne/kapitel af rapporten er således baseret på en række spørgsmål. Disse 'assessment elements' er i forvejen diskuteret og godkendt af projektgruppen. Denne proces er med til at sikre, at projektet kommer til at afdække de mest relevante problemstillinger.

2.9.1 Projektgruppen

Projektet er gennemført i et samarbejde mellem projektgruppens medlemmer og projektledelsen, der har haft til ansvar at sikre, at projektet forløb planmæssigt. Projektledelsen har sikret den overordnede fremdrift og koordination.

Følgende aktører indgik i projektgruppen:

- Camilla Palmhøj Nielsen, forskningsleder, lektor, ph.d., DEFACTUM, Region Midtjylland
- Claus Løvschall, projektleder, cand.scient.san., DEFACTUM, Region Midtjylland
- Simone Küchen, klinisk ansvarlig overlæge, Respirationscenter Øst, Rigshospitalet
- Michael Sprehn, specialeansvarlig overlæge, Respirationscenter Syd, Odense Universitetshospital
- Ole Nørregaard, ledende overlæge, Respirationscenter Vest, Aarhus Universitetshospital
- Kathrine Carstensen, cand.scient.soc., DEFACTUM, Region Midtjylland
- Marie Konge Villemoes, cand.scient.oecon., DEFACTUM, Region Midtjylland
- Lisbeth Ørtenblad, mag.art. i antropologi, MPH, DEFACTUM, Region Midtjylland
- Gitte Valentin, cand.scient.san., DEFACTUM, Region Midtjylland
- Margarete Pfau, studentermedhjælper, stud.scient.san.publ., DEFACTUM, Region Midtjylland
- Katrine Jeppesen, praktikant, stud.scient.san.publ., DEFACTUM, Region Midtjylland
- Uffe Juul Jensen, professor, mag.art., Institut for Kultur og Kommunikation, Afdeling for Filosofi og Idéhistorie, Aarhus Universitet
- Kristian Kidholm, lektor, forskningsleder, CIMT, Syddansk Universitet.

2.9.2 Følgegruppe

Følgegruppen er sammensat af deltagere fra blandt andet regionerne, Danske Regioner, Sundhedsstyrelsen, Kommunernes Landsforening, relevante faglige selskaber og patientforeninger. Følgegruppens opgave bestod i fagligt at kommentere projektbeskrivelsen og det første udkast til den færdige rapport. Faglige kommentarer og forslag er vurderet i forhold til den endelige rapport.

¹¹ <http://eunethta.eu/sites/5026.fedimbo.belgium.be/files/HTACoreModel3.0.pdf>

Invitation til deltagelse i følgegruppen er sendt til:

- Dansk Selskab for Almen Medicin
- Dansk Selskab for Anæstesiologi og Intensiv Medicin
- Dansk Lungemedicinsk Selskab
- Dansk Neurologisk Selskab
- Dansk Pædiatrisk Selskab
- Dansk Selskab for Otolaryngologi, Hoved- & Halskirurgi
- Kommunernes Landsforening
- Sundhedsstyrelsen
- Region Nordjylland
- Region Midtjylland
- Region Syddanmark
- Region Sjælland
- Region Hovedstaden
- Danske Patienter
- Lungeforeningen
- Muskelsvindfonden
- RYK - Rygmarvsskadede i Danmark
- Hjernesagen
- Danske Regioner.

3 Effektforhold

Hovedkonklusioner

- På baggrund af systematiske reviews og primære studier peger resultaterne i retning af en nogenlunde konsistent fordel ved anvendelse af NIV-behandling (og invasiv behandling) i forhold til mortalitet, livskvalitet, hospitalisering og lungefunktion, såfremt patienten er i stand til at tolerere behandling. (Disse resultater vedrører patientgrupper hvor der er et reelt alternativ til HMV. Inden for visse patientgrupper, særligt patienter med svært reduceret eller ophørt vejtrækning, er HMV sædvanligvis indiskutabel).
- Resultater i nedenstående kapitel er forankret i et meget svagt evidensgrundlag. Det medfører, at tilliden til resultaterne generelt er meget lav. Det har ikke været muligt at gennemføre metaanalyser på datamaterialet.
- Litteraturgennemgangen viser desuden, at der skal tænkes i alternative metodiske tilgange til afdækning af effektforhold, da brugen af klassiske studiedesigns kompliceres af etiske og designmæssige forhold såsom randomisering/sammenligningsgrundlag.

3.1 Indledning

I nærværende kapitel ønskes kliniske effektforhold ved HMV undersøgt. Patientgruppen omfatter patienter/patientgrupper med kronisk respirationsinsufficiens samt behov for invasiv eller non-invasiv HMV med overvågning hele eller det meste af døgnet.

3.2 Metode

I dette kapitel afdækkes og besvares analysespørgsmål via systematisk litteraturgennemgang. Der henvises til afsnit 2.6 og 2.7 og bilag 1 til beskrivelse af den overordnede systematiske litteratursøgning og systematisk udvælgelse, indsamling af oplysninger og gennemgang.

Litteraturgennemgangen er baseret på nationale/internationale studier inden for området, systematiske reviews og nyere primære studier, som ikke er vurderet i forbindelse med en systematisk opsamling. Overføringsværdien af den tilgængelige litteratur til danske forhold vurderes.

I tabel 3.1. nedenfor præsenteres udvalgte analysespørgsmål (assessment elements) fra EU-netHTA's HTA Core Model, som danner baggrund for analysen.

Tabel 3.1. Udvalgte spørgsmål (assessment elements) fra EUnetHTA's HTA Core model inden for domænet effektforhold

Område	Analysespørgsmål
Mortalitet	Hvad er effekten af HMV i forhold til mortalitet?
Morbiditet	Hvordan påvirker HMV symptomer (alvorlighed, forekomst) ved relevante lidelser, samt progression (eller tilbagefald) af lidelsen??
Funktion	Hvordan påvirker HMV ADL aktiviteter (activities of daily living) samt patientens funktionsevne?
Helbredsrelateret livskvalitet	Hvad er effekten af HMV i forhold til generisk og sygdomsspecifik livskvalitet?
Patienttilfredshed	Er patienterne tilfredse med HMV?
Ændring i behandling	Hvordan ændrer HMV behov for hospitalisering?
Fordele-ulemperbalance	Hvad er de overordnede fordele og ulemper ved HMV hvad angår effektforhold?

Målgruppen for denne MTV består af patienter, der modtager HMV på grund af respirationsinsufficiens/-svigt. HMV kan gives enten invasivt via en trakeostomi eller non-invasivt gennem en ansigtsmaske. Effektforhold i relation til forskelligt apparatur eller masketyper beskrives ikke. Der medtages i enkelte tilfælde studier hvor patientgruppen eller konteksten i mindre grad afviger fra MTV 'ens målgruppe. Ligeledes varierer beskrivelse og kategorisering af patientgrupper og interventionstyper i de inkluderede studier. Disse forhold beskrives løbende.

Det var forventet, at der kunne gennemføres metaanalyser. På grund af studiernes beskaffenhed og den variation, der kendetegner patientgrupper, interventioner, studiedesign, sammenligningsgrundlag og effektmål, vurderes det ikke relevant at gennemføre metaanalyser.

Formålet med HMV kan variere mellem forskellige patientgrupper. Oftest er *mortalitet* og *livskvalitet* primære effektmål. Andre effektmål er ikke planlagte *hospitalsindlæggelser*, som medtages da det ikke blot har stor indflydelse på patienter og pårørende, men også er omkostningstungt for sundhedsvæsenet. Desuden bemærkes i flere studier at hospitalisering er indikator på kvaliteten af sygehusbehandlingen. Derudover medtages udvalgte effektmål inden for hovedgrupperne lungefunktion og blodværdier. Der vil være effektmål der ikke refereres, blandt andet træthed og hovedpine.

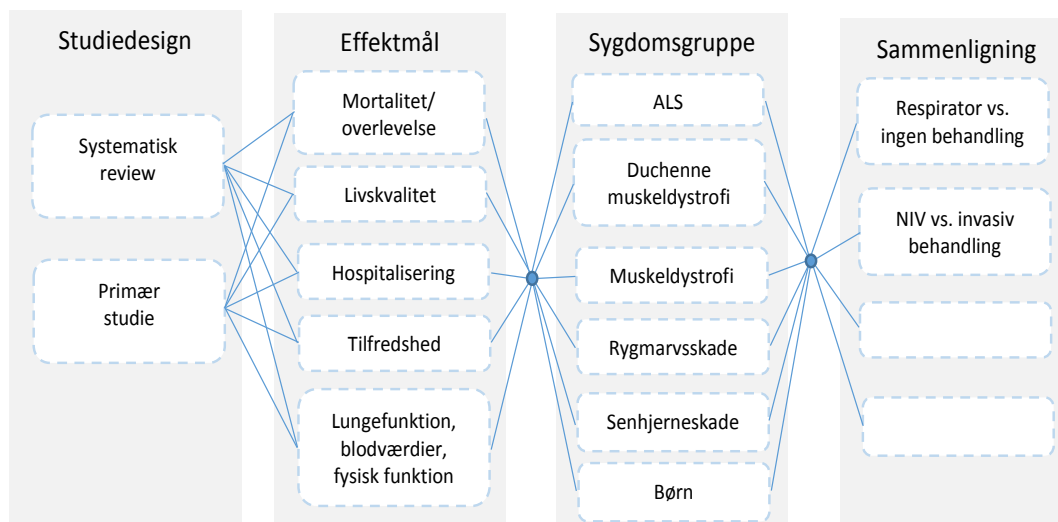
Litteraturgennemgangen tager udgangspunkt i systematiske reviews (i form af kliniske retningslinjer, MTV-rapporter eller systematiske reviews) som på baggrund af metodisk tilgang og kvalitet er vurderet relevante og egnede. Jf. figur 3.2. er der udvalgt ni systematiske reviews. Årsagen til, at ni reviews udvælges beror på et alsidigt formål om at beskrive mange sygdomsområder, interventionsformer og effektforhold relateret til forskellige delforløb i sygdomsprocessen. De systematiske reviews/kliniske retningslinjer er kvalitetsvurderet jf. nedenstående.

Udgangspunktet for analysen er følgende patientgrupper:

- Amyotrofisk lateralsklerose (ALS)
- Duchennes muskeldystrofi
- Muskeldystrofi (MD)
- Rygmarvsskade
- Erhvervet hjerneskade

Præsentation af resultater gennemføres narrativt. Jf. figur 3.1. er omfanget af enkeltstående resultater potentielt betydeligt. Dog er der ikke fundet resultater inden for alle subgrupper på alle effektmål. Særligt er resultater inden for ALS undersøgt. Der forekommer betydelig variation i litteraturen i forhold til beskrivelse og systematisering af sygdomsgrupper, interventioner og kontekster.

Figur 3.1. Illustration af mulig kategorisering af effektforhold*

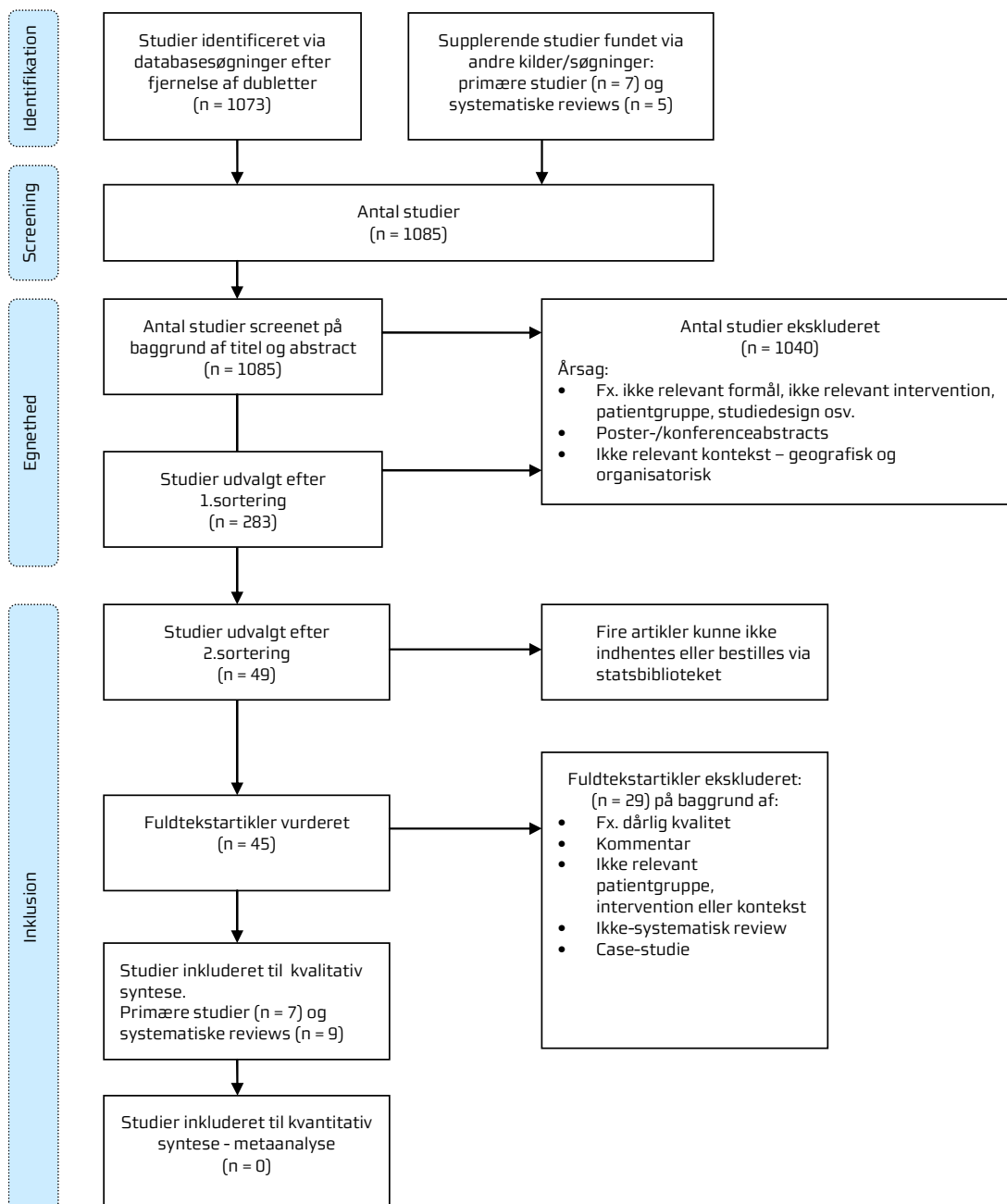


* Figuren skal være med til at illustrere, hvordan resultater kan grupperes, fx vil der på baggrund af systematiske reviews blive præsenteret resultater vedrørende mortalitet inden for sygdomsgruppen ALS i forhold til NIV-behandling versus invasiv behandling (jf. tabel 2.1)

3.3 Resultater

Litteratursøgningen resulterede i 16 inkluderede studier (figur 3.2, tabel 3.2 og 3.4).

Figur 3.2. Prisma-diagram over udvælgelse af studier



På baggrund af søgedatoer i de ni inkluderede systematiske reviews publiceret i årene 2009-2015 ekskluderes primære studier publiceret indtil 2009. Der tages højde for, at primære studier ikke inkluderes både som enkeltstudie og via reviews, og at der ikke dobbelttælles. Alle danske primære studier inden for søgeperioden inkluderes, dog med forbehold for førnævnte forhold om dobbelttælling. Både kontrollerede og ikke-kontrollerede primære kohortestudier inkluderes.

3.3.1 Systematiske reviews

Ni systematiske reviews, heraf et Cochrane-review (14) og en tysk MTV-rapport rapporteret i en artikel (15), samt tre kliniske retningslinjer (16-18), blev identificeret og udvalgt. For kort præsentation af studierne, se tabel 3.2.

Tabel 3.2. Karakteristik af inkluderede systematiske reviews

Forfatter Studiedesign Land, år	Formål	Patienter (n)	Søgeproces	Kvalitet
Mckim et al. (16) Klinisk retningslinje/systematisk review Canada, 2011	At vejlede patienter, plejepersonale og behandlingsenheder ift. HMV blandt forskellige patientpopulationer	Voksne personer, der har behov for eller bruger respirator i hjemmet	Afsluttet juni 2010	AGREE-vurdering Overordnet kvalitet: 6/7
Brurberg et al. (1) Systematisk review Norge, 2012.	At undersøge effekten af HMV hos mennesker med respirationsinsufficiens	Patienter med neuromuskulære lidelser og patienter med svigt i centrale respirationsstyring	Afsluttet juni 2012	AMSTAR-score: 8/11
Geiseler et al. (15) MTV-rapport Tyskland, 2010	Delformål: hvilken effekt har HMV på patientens symptomer og kliniske fund.	Patienter med neuromuskulære sygdomme.	Afsluttet dec. 2008	AMSTAR-score: 9/11
Hull et al. (17) Klinisk retningslinje/systematisk review Storbritannien 2012	At opsummere den tilgængelige evidens inden for feltet respiratorisk håndtering af børn med neuromuskulære lidelser samt at komme med anbefalinger, som kan bidrage til, at sundhedsprofessionelle kan levere patientpleje af høj kvalitet	Børn med neuromuskulære lidelser, ofte kongenitale	Afsluttet maj 2011	AGREE-vurdering Overordnet kvalitet: 6/7
Andersen et al. (18) Europæiske kliniske retningslinjer 2012	At etablere evidensbase-rede samt patient- og pårørende-centrerede anbefalinger for diagnosticering og håndtering af patienter med ALS til klinikere.	Patienter med ALS	Afsluttet feb. 2011	AGREE-vurdering Overordnet kvalitet: 4/7
Hannan et al. (19) Systematisk review Australien/Canada, 2013	At undersøge om NIV-behandling forbedrer overlevelsen hos patienter med eller i risiko for at udvikle kronisk respirationsinsufficiens.	Patienter med ALS/MND, DMD, RTD og OHS.	Afsluttet dec. 2012	AMSTAR-score: 10/11
MacIntyre et al. (20) Systematisk review Canada, 2015	At undersøge alle tilgængelige studier som evaluerer mindst et PROM hos patienter som modtager HMV.	Patienter med MND, RTD og OHS.	Afsluttet aug. 2013	AMSTAR-score: 9/11
Radonovic et al. (14) Cochrane review 2009	At undersøge effekten af respiratorbehandling (trakeostomi og NIV) i forhold til overlevelse, sygdomsprogression og livskvalitet.	Patienter med ALS	Afsluttet dec. 2008	AMSTAR-score: 10/11
Vrijzen et al. (21) Systematisk review Belgien, 2013	At undersøge effekterne af NIV-behandling hos patienter med ALS	Patienter med ALS	Juli 2012	AMSTAR-score: 2/11

De inkluderede studier i de systematiske reviews fokuserer primært på effekt af NIV-behandling, da langt hovedparten af patienter udenfor Danmark behandles non-invasivt.

3.3.2 Kvalitet af studier

Kvaliteten af de systematiske reviews vurderet via AMSTAR og AGREE II er generelt høj, hvorimod kvaliteten af inkluderet primærlitteratur generelt er lav. Dette begrænser overordnet set tilliden til konklusioner og estimater.

3.4 Resultater fra systematiske reviews

I tabel 3.3. vises uddragne resultater fra de systematiske reviews. Særligt resultater inden for sygdomsområdet ALS er velbeskrevet. Der er ikke fundet relevante studier inden for sygdomsgruppen erhvervet hjerneskade.

Tabel 3.3. Resultater fra systematiske reviews fordelt på effektmål og udvalgte sygdomsgrupper

Forfatter Studiedesign Land, år	ALS	Duchennes muskeldystrofi (DMD)	Muskeldystrofi (MD)	Rygmarvsskade
Mortalitet/overlevelse				
McKim et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011	Trakeostomi (1,5-5 % af patienter): 58 % (3-årsfollowup) 33 % (5-årsfollowup) (ét studie) NIV vs. ingen beh.: en RCT af Bourke et al. (n=41): gennemsnitlig 219 dage vs. 171 dage (statistisk signifikant forskel). Subgruppen med "bedre" bulbær funktion viste en overlevelsestid på 216 dage ift. 11 dage hos patienter med dårlig bulbær funktion. Syv kohortestudier: Moderat forlænget overlevelse blandt NIV-brugere.	Ni ud af 10 studier finder øget overlevelseshastighed blandt NIV-behandlede ift. ingen behandling – typisk historiske kontroller. Overlevelseshastigheden var i de fleste studier øget markant. Således også i et dansk studie fra 2003 som fandt at overlevelseshastigheden inden for afgrænsede aldersgrupper var øget med en faktor 3-4. Dog fandtes i et RCT-studie med tidlig opstart af NIV i sygdomsforløbet signifikant lavere overlevelse i NIV-gruppen ift. ingen behandling.		Der fandtes ingen studier som evaluerede potentielle forskelle i overlevelse (morbiditet og livskvalitet) mellem invasive og non-invasive respiratorbehandlede patienter i eget hjem. To studier blandt rygmarvsskadede viste at respiratorafhængighed var en uafhængig risikofaktor for mortalitet i forhold til ikke at have behov for respiratorbehandling. Respiratoriske komplikationer var den hyppigste årsag til dødelighed inden for gruppen. Forfatterne forklarede overdødeligheden med respiratoriske lidelser.
Brurberg et al.* Systematisk review Norge, 2012 (NICE-guideline)	NIV vs. ingen beh.: samme datagrundlag som i McKim et al. Overlevelsen var bedre blandt brugere med høj tolerance og mere optimal brug af NIV. Trakeostomi: Ét studie viste bedre overlevelse blandt trakeostomerede ift. NIV-brugere med median overlevelse på 41 måneder for trakeostomi versus 32 måneder for non-invasiv ventilation (p=0,049)	NIV ift. ingen beh.: to kohortestudier (samme datagrundlag som i McKim et al.) refererer øget overlevelse i NIV-gruppen. NIV ift. invasiv behandling: ingen forskel mellem grupperne.		

Forfatter Studiedesign Land, år	ALS	Duchennes mu- skeldystrofi (DMD)	Muskel- dystrofi (MD)	Rygmarvsskade
Geiseler et al. MTV-rapport Tyskland, 2010	Forfatterne beskriver at livsforlængelse er sandsynligt, især med invasiv mekanisk ventilation, som synes sikrere end NIV-ventilation – ift. utætheder og aspiration.			
Hull et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Storbritannien 2012	En del studier omhandler patienter, som udelukkende modtager NIV-behandling om natten, og resultater herfra medtages ikke. Overlevelse beskrives i syv studier hos børn med neuromuskulær svækkelse (DMD eller SMA (spinal muskelatrofi)). I fire studier fandtes signifikant forbedret overlevelse blandt drenge med DMD sammenlignet med historiske kontroller. Resultatet blev tilskrevet rutinemæssig brug af NIV, selvom mere effektiv behandling ift. luftvejssekreter sandsynligvis har bidraget til dette resultat. I et andet studie fandtes ved to års opfølgning blandt 10 patienter med DMD forbedret overlevelse blandt NIV-brugere. I to studier fandtes hos børn med SMA type 1, at forbedret overlevelse var forbundet med anvendelse af respiratorbehandling enten invasivt eller non-invasivt. I tre studier blandt patienter med DMD eller SMA fandtes at NIV-behandling via maske eller mouthpiece havde samme effekt på overlevelse som hos patienter, som var trakeostomerede.			
Andersen et al. Europæiske retningslinjer. 2012	NIV-behandling forbedrer overlevelse og fremhæves som den foretrukne terapiform til lindring af symptomer på respiratorisk insufficiens. Denne effekt er ikke blevet bekræftet hos patienter med bulbær debuterende sygdom. Patienter med bulbær parese er mindre kompatible med NIV, dels på grund af øget sekretdannelse. Invasiv respiratorbehandling kan forlænge overlevelsen, i nogle tilfælde i mange år. Der er en risiko for, at nogle patienter vil udvikle locked-in-syndrom.			
Hannan et al. Systematisk review Australien/Ca- nada, 2013	NIV vs. ingen beh.: samme datagrundlag som i McKim et al.	Et RCT-studie (samme som McKim et al.) refererer signifikant lavere overlevelse i NIV-gruppen.		
Radonovic et al. Cochrane re- view 2009	NIV vs. ingen beh.: samme datagrundlag som i McKim et al.			
Vrijssen et al. Systematisk review Belgien, 2013	I en ikke-randomiseret, kontrolleret, prospektiv undersøgelse om brugen af BiPAP fandtes signifikant øget overlevelse i interventionsgruppen (NIV) sammenlignet med en palliativ gruppe. Et andet studie viste at kontinuerlig NIV-behandling i kombination med assisteret hostestøtte forlængede overlevelsen og udsatte anvendelsen af trakeotomi med mere end et år hos flere end 20 % af ALS-patienter. Derudover henvises til samme RCT af Bourke et al. som i McKim et al.			

Forfatter Studiedesign Land, år	ALS	Duchennes muskeldystrofi (DMD)	Muskel-dystrofi (MD)	Rygmarvsskade
Livskvalitet				
McKim et al. klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011	Trakeostomi: Overordnet fandtes god livskvalitet NIV vs. ingen beh.: en RCT (n=41): forbedret livskvalitet blandt NIV-brugere Seks kohortestudier: forbedret livskvalitet blandt NIV-brugere, dog ikke inden for domæner vedrørende fysisk funktion.	I fem studier fandtes niveauer for livskvalitet på højde med blandt andet baggrundsbefolkning eller andre kroniske patientgrupper blandt NIV-brugere. Dog er den fysiske dimension af livskvaliteten typisk mest påvirket negativt.	Eventuel bedring i livskvalitet. Ringe belyst.	I et studie med follow-upperiode over 20 år fandtes blandt respiratorafhængige og respiratoruafhængige personer "god eller fremragende" livskvalitet hos hhv. 77 og 79 % af de adspurgte. Samtidig erkendte 95 %, de var "glad for at være i live".
Brurberg et al. Systematisk review Norge, 2012 (NICE-guideline)	NIV vs. ingen beh.: samme datagrundlag som i McKim et al.	Der fandtes ingen forskel mellem brugere af NIV og invasivt behandlede.		Ingen forskel mellem respiratorafhængige og respiratoruafhængige personer.
Hull et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Storbritannien 2012	I et studie fandtes ingen forskel mellem brugere af NIV og invasivt behandlede.			
Andersen et al. Europæiske retningslinjer. 2012	NIV-behandling forbedrer patienternes livskvalitet. Der er ikke fundet evidens vedrørende livskvalitet ved invasivt behandlede patienter.			
Hannan et al. Systematisk review Australien/Canada, 2013	NIV vs. ingen beh.: samme datagrundlag som i McKim et al.			
MacIntyre et al. Systematisk review Canada, 2015	I fem studier blev livskvalitet (via SF-36) undersøgt før og efter igangsætning af respiratorbehandling. Enkelte studier var gengangere fra ovenstående reviews. Forbedret livskvalitet var mere konsistent på tværs af det psykiske domæne sammenlignet med det fysiske domæne. Det fysiske domænes scoringer var mere heterogene. Der fandtes ingen klinisk relevant forringelse i nogen af de inkluderede sygdomsgrupper. I et studie, som benyttede Sickness Impact Profile (SIP), fandtes væsentlig funktionel svækkelse hos patienter med NMD (n = 49) sammenlignet med ingen funktionel svækkelse hos patienter med kyfaskoliose (n = 19), mens der i et andet studie fandtes sammenlignelige forbedringer i begge grupper.			
Vrijssen et al. Systematisk review Belgien, 2013	NIV vs. ingen beh.: en RCT (n=41): forbedret livskvalitet blandt NIV-brugere (samme RCT som McKim et al.). I modsætning hertil viste et retrospektivt studie, at NIV, med eller uden kombination af perkutan endoskopisk gastrostomi, ikke betydeligt forbedrede den samlede livskvalitet.			

Forfatter Studiedesign Land, år	ALS	Duchennes muskeldystrofi (DMD)	Muskeldystrofi (MD)	Rygmarvsskade
Hospitalisering				
McKim et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011		I tre ud af fire studier angives mindre behov for hospitalisering ved brug af NIV ift. ingen behandling		Ingen signifikant forskel mellem respiratorbehandlede og ikke-respiratorafhængige personer - 14-24 år efter skaden.
Brurberg et al. Systematisk review Norge, 2012 (NICE-guideline)		Samme studier og resultater som ovenstående: ingen forskelle i hospitalisering mellem NIV-brugere ift. kontrolgruppe eller færre hospitaliseringer efter opstart af behandling. Der sås en tendens til færre indlæggelser blandt NIV-brugere ift. invasiv behandling		I et studie rapporteres ingen forskel i antal årlige sygehusindlæggelser mellem respiratorbrugere og ubehandlet kontrolgruppe.
Hull et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Storbritannien 2012	Hull et al. henviser til et studie af Bach et al. (1998) som også refereres i ovenstående reviews. Hull et al. beskriver derudover en lav forekomst af hospitalsindlæggelser blandt NIV-brugere end blandt trakeostomerede patienter (0,2 indlæggelser vs. 0,6 indlæggelser per patient per år (p <0,05). I ét studie var indlæggelse hyppigere i NIV-gruppen i barnets første 3 leveår, med 1,6 indlæggelser per patient per år i forhold til 0,4 indlæggelser per patient per år hos trakeostomerede. Efter 5-årsalderen var hospitalisering usædvanlig i begge grupper (0,1 indlæggelser per patient per år).			
MacIntyre et al. Systematisk review Canada, 2015	I ni studier undersøgtes hospitalisering efter igangsættelse af respiratorbehandling (patienter, n =1528). Indlæggelsesrater og antal dage på hospitalet fandtes samlet set af være lav og at falde i de efterfølgende år på tværs af studier og sygdomstilstande efter igangsætning af respiratorbehandling. Årsager til indlæggelse var typisk relateret til hjerte- eller respirationsproblemer. Fortolkning af undersøgelsesresultater var begrænset og kunne ikke samles i metaanalyse på grund af heterogenitet på tværs af sygdomme og rapporteringsmetoder.			
Fysisk funktion				
Hannan et al. Systematisk review Australien/Canada, 2013	Der var ingen tilsyneladende effekt på fysisk funktion i forbindelse med NIV-behandling. Der var uoverensstemmelse på tværs af studier ift. social funktion.			
Tilfredshed				
McKim et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011	90 % af patienterne var tilfredse med deres beslutning om trakeostomi, og 94 % af plejepersonalet var tilfredse.			

Forfatter Studiedesign Land, år	ALS	Duchennes muskeldystrofi (DMD)	Muskel-dystrofi (MD)	Rygmarvsskade
Lungefunktion				
McKim et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011	Tre ud af fire kohortestudier viste mindsket forværring af lungefunktion (vitalkapacitet) blandt NIV-brugere ift. ikke-NIV-brugere.	I fire ud af ni studier fandtes mindsket nedgang i vitalkapaciteten blandt NIV-brugere oftest ved sammenligning med historiske kontroller (ikke-brugere) I fem studier fandtes ingen forskel mellem grupperne.		
Brurberg et al. Systematisk review Norge, 2012 (NICE-guideline)		Som ovenstående		
Blodværdier				
McKim et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011	Tre kohortestudier viste forbedrede dagtidslodværdier (pCO ₂)	I tre studier fandtes forbedrede blodværdier ved NIV	I tre studier fandtes forbedrede blodværdier ved NIV	
Brurberg et al. Systematisk review Norge, 2012 (NICE-guideline)		Som ovenstående		

□ = ingen data

* I den norske rapport af Brurberg et al. opdateres tilgængelig viden om 'langtidsmekanisk ventilation' uden for sygehus - altså primært i hjemmet. Den norske rapport falder meget tæt inden for denne rapporters rammer og har opdateret søgning indtil juni 2012. I rapporten inkluderes desuden resultater fra retningslinjer udarbejdet af NICE¹². NICE-guidelinen omhandler vurdering og behandling af voksne med motorneuronsygdomme (MND). Behandling med trakeostomi indgår ikke i rapportens formål. Guidelinen fra NICE er opdateret i 2016 men ikke evidensopdateret i forhold til respiratorbehandling og MND siden 2010. Således bringes kun resultater fra den norske rapport.

3.4.1 Mortalitet/overlevelse

Resultaterne viser, at NIV-behandling (og invasiv behandling) sandsynligvis fører til forlænget overlevelse. Konklusionen hviler på et svagt evidensgrundlag, hvorfor det betegnes som værende sandsynligt, til trods for at studiedesigns i de inkluderede studier overordnet set skaber ringe forudsætninger for pålidelige konklusioner. Det tyder desuden på, at trakeostomerede patienter har længere overlevelse end NIV-brugere (to reviews). Ét primærstudie viste bedre overlevelse blandt trakeostomerede i forhold til NIV-brugere med median overlevelse på 41 måneder for trakeostomi versus 32 måneder for non-invasiv ventilation ($p=0,049$). Dog fandt Hull et al. at NIV-behandling via maske eller mouthpiece havde samme effekt på overlevelse som hos patienter som var trakeostomerede. Andersen et al. bemærker at tilgængeligheden

¹² National Institute for Clinical Excellence. Motor neurone disease: the use of non-invasive ventilation in the management of motor neurone disease. London. 2010.

og den kulturelle accept af invasiv behandling hos patienter med ALS varierer meget mellem forskellige lande og kulturer.

I et enkelt ofte refereret RCT-studie af Bourke et al. fra 2006 (22) vedrørende NIV-behandling versus ingen behandling blandt ALS-patienter, findes en signifikant længere median overlevelse på 48 dage blandt NIV-brugere, og resultater for denne patientgruppe tyder på, at blandt andet også bulbær funktion (synke, tygge og talefunktioner) har betydning for overlevelsen. Studiet er af god kvalitet, og evidensen inden for det specifikke område vurderes af Brurberg et al. som værende lav mens evidensgrundlaget i forhold til øvrige konklusioner til sammenligning vurderes som værende meget lavt. Blandt patienter med DMD tyder ét RCT-studie på, at tidlig igangsætning af behandling ikke er gavnligt for patienterne. Overordnet set fandtes her ingen væsentlige forskelle i overlevelse mellem invasivt behandlede og NIV-behandlede respiratorbrugere. Et dansk studie af Jeppesen et al. (23) som refereres i McKim et al. viste blandt 15-19-årige respiratorbrugere (fra 1988-2001) en mortalitetsrate/100 år blandt DMD-patienter på 3,8 versus 9,8 blandt ikke-respiratorbrugere. For 20-24 år fandtes en mortalitetsrate på 2,6 versus 10,5, og i aldersgruppen +29 år fandtes ingen variation i dødeligheden mellem de to grupper.

I flere reviews refereres til studie af Rafael et al. Fra 1994 (24). Studiets resultater for DMD viser signifikant ringere overlevelse i behandlingsgruppen ved tidlig igangsætning af NIV-behandling. McKim et al. forklarer disse resultater, som viser det modsatte af alle inkluderede kohortestudier med, at den tidlige igangsætning af behandlingen kan have medført falsk trykshedsfølelse, som kan have ført til forsinkelser i lægekonsultation i forbindelse med fx lungeinfektioner i NIV-gruppen. McKim et al. bemærker flere forhold som kan have "confounded" resultaterne, blandt andet: natlige blodværdier af pCO₂ blev ikke målt enten før eller under anvendelsen af NIV, der var en højere forekomst af hjerteproblemer i NIV-gruppen, opfølgning var relativt sjældent, og graden af opmærksomhed på hosteteknikker samt indstilling af ventilator under søvn kan have været utilstrækkelig.

3.4.2 Livskvalitet

De inkluderede reviews viste forbedret livskvalitet ved brug af NIV-behandling i forhold til ingen behandling hos patienter med ALS, Duchennes muskeldystrofi og anden muskeldystrofi. Dog fandtes den fysiske dimension af livskvaliteten typisk mest påvirket i negativ retning. Der fandtes ingen forskelle mellem NIV-behandlede og invasivt behandlede patienter.

Hvad angår patienter med rygmarvsskade fandtes ingen forskelle mellem respiratorbrugere og ikke-respiratorbrugere. Patienterne rapporterede høj livskvalitet.

3.4.3 Hospitalisering

Resultater viser samme eller mindre behov for indlæggelse ved NIV-behandling i forhold til ingen behandling. I forhold til trakeostomerede patienter var resultaterne ikke entydige. Tendensen var dog øget antal indlæggelser blandt patienter med trakeostomi i forhold til NIV-brugere.

I to systematiske reviews fandtes ingen forskel i hospitalisering mellem respiratorbrugere og ikke-respiratorbrugere hos patienter med rygmærskade.

3.4.4 Øvrige effektmål

I to reviews undersøgtes lungefunktionen. Hovedparten af de inkluderede primære studier viste en mindsket nedgang i vitalkapaciteten hos NIV-brugere i forhold til ingen behandling. De resterende studier kunne ikke påvise nogen forskel mellem grupperne. Derudover fandtes forbedrede blodværdier ved brug af NIV-behandling.

3.5 Primære studier

Der er udvalgt i alt syv primære studier (tabel 3.4). Alle studier er observationelle studier, oftest retrospektive, og publiceret inden for de seneste 7 år. Studierne er reelt set ikke-kontrollerede, da der ikke kan etableres et rimeligt sammenligningsgrundlag i nogen af studierne jf. nedenstående. Der benyttes således ikke GRADE i analysen, men kun beskrivende sammenfatning. I fire studier beskrives overlevelse blandt ALS-patienter ved brug af NIV-behandling, invasiv behandling eller i kombination. I to studier beskrives livskvalitet, depression/angst, og i tre studier beskrives blodværdier og lungefunktion.

Tabel 3.4. Karakteristik af inkluderede primære studier

Forfatter Studiedesign Land, år	Formål	Patienter	Metode	Effektmål og Followup	Kvalitet
Dreyer et al. (25) Kohortestudie Danmark, 2013	At beskrive brugen af non-invasiv og invasiv respiratorbehandling hos patienter med ALS i Vestdanmark mht. patientkarakteristika, overlevelse og prognostiske faktorer.	ALS: 409 patienter fra perioden 1998-2012 blev inkluderet. Aldersgennemsnit: 62 år	Patienter blev inddelt i 4 grupper: 1: ingen beh. 2: NIV 3: NIV efterfulgt af invasiv beh. 4: invasiv beh.	Overlevelse Op til 17 år	Meget lav/ ikke acceptabel
Hazenberget al. (26) Kohortestudie Holland 2016	At undersøge effekten af NIV på livskvalitet (samt depression og angst) hos patienter med ALS i forhold til andre patientgrupper med behov for NIV.	30 deltagere med ALS vs. 47 deltagere med anden neuromuskulær sygdom (bl.a. myotonisk dystrofi og kyfoskoliose)	Alle patienter modtog NIV-behandling. Aldersgennemsnit var hhv. 60 og 58 år for ALS-gruppen og kontrolgruppen.	Livskvalitet, lungefunktion, blodværdier, depression og angst. Followup ved 2 og 6 måneder.	Meget lav/ ikke acceptabel
Hazenberget al. (27) RCT Holland 2014	At undersøge effekten af igangsætning af respiratorbehandling i hjemmet i forhold til igangsætning på hospital.	Kronisk respiratorisk svigt som følge af neuromuskulær sygdom (NMD) eller kyfoskoliose	77 patienter blev inkluderet, hvoraf 38 patienter startede HMV	Arteriel CO ₂ (PaCO ₂) Livskvalitet Followup ved 6 måneder.	Studiet medtages som et case-series-studie, da formålet afviger fra denne rapport's formål

Kherani et al. (28) Kohortestudie Canada, 2015	At undersøge overlevelse og komplikationer på lang sigt hos børn igangsat med NIV-behandling sammenlignet med invasivt behandlede børn	Børn under 1 år (n=51) med forskellige neurologiske, neuromuskulære og respiratoriske lidelser	NIV: 25 patienter Invasiv: 26 patienter	Overlevelse Lungefunktion Komplikationer	Meget lav/ ikke acceptabel
Kun et al. (29) Kohortestudie USA, 2012	At undersøge 12-måneders incidens og risikofaktorer for genindlæggelse hos børn med kronisk respirationsinsufficiens efter igangsætning af HMV via trakeostomi	109 børn og unge under 21 år. Kun en mindre andel havde relevant diagnose – neuromuskulære lidelser	Der blev gennemført retrospektiv kohorteundersøgelse. Patienter blev fulgt op mellem 2003 og 2009	Genindlæggelse Komplikationer	Meget lav/ ikke acceptabel
Sanjuan-Lopez et al. (30) Kohortestudie Spanien, 2014	At undersøge effekten af HMV på overlevelsen hos patienter med ALS.	114 ALS-patienter (m/k: 57/57). Aldersgennemsnit: 67 år. Bulbær lidelse: 56 %.	Der blev gennemført retrospektiv analyse af patienter med diagnosen ALS, som fortløbende blev indlagt på hospital	Overlevelse Followup: Op til 11 år	Meget lav/ ikke acceptabel
Spartaro et al. (31) Kohortestudie Italien, 2012	At undersøge kliniske karakteristika og overlevelse hos trakeostomerede ALS-patienter fulgt i et enkelt ALS-center.	279 ALS-patienter blev prospektivt fulgt indtil død eller trakeostomi. Aldersgennemsnit: 61-63 år.	Der blev gennemført retrospektiv analyse af patienter med diagnosen ALS via elektronisk database	Overlevelse Followup: op til 9 år	Meget lav/ ikke acceptabel

3.5.1 Kvalitet og overførbarhed af studier

Kvaliteten af de inkluderede studier er ikke acceptabel eller meget lav. Det gennemgående problem vedrørende studierne interne validitet er manglende sammenligningsgrundlag i forhold til de grupper, der benyttes som kontrolgruppe. At der ikke kan etableres et reelt sammenligningsgrundlag betyder, at der alt andet lige ikke kan fremsættes endelige konklusioner på baggrund af de primære studier om effekten af fx NIV-behandling. Der er således høj risiko for bias, da andre forhold end interventionen kan påvirke studierne resultater – der er lav intern validitet i studierne. Disse forhold bemærkes også i studierne (27). Det er primært på grund af, at studierne eller patienterne ikke kommer fra samme population men har modtaget forskellig behandling i de opstillede grupper på baggrund af blandt andet sygdomstilstand. Problemet er, at det ikke alene er effekten af den behandling, vi er interesseret i, der undersøges, men ligeledes udviklingen i sygdomsforløb inden for forskellige sygdomsgrupper over tid ved HMV. Derfor vil man ikke efterfølgende på baggrund af studierne kunne udtale sig om, hvordan aktuelle patientgrupper ville have reageret uden behandling. Således bemærkes det også i flere studier, at der er signifikante forskelle i indikationsområder i forhold til respiratorbehandling (28). Studierne kan således kategoriseres som ikke-kontrollerede studier eller case-series-studier, og vil typisk blive ekskluderet på baggrund af dårlig kvalitet. Det er valgt alligevel kort at referere resultater fra studierne, da det kan give en pejling på de effektforhold, der udspiller sig i interventionsgrupperne, og dertil afdække behov for videre forskning/monitorering af aktiviteter inden for området.

Det er ikke muligt i tilstrækkelig grad at vurdere, ud fra hvilke kriterier behandling er igangsæt, selvom oplysninger om fx alder, køn, diagnose o.a. er givet. Vurdering om igangsætning er en kompliceret proces, og kulturelle, geografiske og institutionelle faktorer spiller en rolle her. Det er usikkert, om dansk klinisk praksis i rimeligt omfang modsvarer international praksis, og derfor skal den internationale litteratur af den årsag og på baggrund af kvaliteten af evidensen læses med forsigtighed. Ofte falder større dele af patientgrupperne og konteksten uden for denne rapports inklusionskriterier. Resultater er derfor vejledende og bør følges op af yderligere forskning.

3.5.2 Resultater fra primære studier

Tabel 3.5. Resultater fra primære studier fordelt på effektmål og udvalgte sygdomsgrupper

Mortalitet	
ALS	<p>I et dansk studie af Dreyer et al. fandtes, at overlevelsesraten var markant højere blandt patienter, der modtog NIV-behandling efterfulgt af invasiv behandling i forhold til andre behandlingsgrupper. 5-års overlevelsesraten for gruppe 1 (ingen beh.), gruppe 2 (NIV), gruppe 3 (NIV-behandling efterfulgt af invasiv behandling) og gruppe 4 (invasiv behandling) var på henholdsvis 5, 6, 25 og 13 %. Grupperne i studiet er ikke direkte sammenlignelige.</p> <p>Sanjuan-Lopez et al. fandt, at den gennemsnitlige overlevelse blandt alle inkluderede patienter (n=114) efter sygdomsdiagnose var 28 måneder (95 % konfidensinterval [95 % CI], 21,1-34,8) og median 20 måneder (95 % CI, 17,2-22,7). Gennemsnitlig overlevelse blandt de 37 patienter, som fik NIV og ikke efterfølgende invasiv ventilation, var 23,3 måneder (95 % CI, 16,7-28,8), med en median på 19,7 (95 % CI, 14,0-25,4).</p> <p>Median overlevelse blandt ALS-patienter med ikke-bulbær sygdom efter diagnose, som fik NIV, var 30,15 måneder (95 % CI, 19,1-41,2), mens den hos patienter med bulbær ALS var 17,4 måneder (95 % CI, 10,5-24,2) (ikke signifikant forskel). Med hensyn til invasiv behandling var den gennemsnitlige overlevelse blandt syv patienter 72 måneder (95 % CI, 14,36-129,6) (signifikant længere overlevelse end blandt de 107 NIV-patienter (P = .01)). Grupperne i studiet er ikke direkte sammenlignelige.</p> <p>Spartaro et al. fandt, at invasiv behandling i høj grad medførte øget overlevelse. Mediane overlevelse fra sygdomsdebut til død var 47 måneder (IQR = 33-61) for trakeostomerede patienter og 31 måneder (IQR = 20-47) for ikke-trakeostomerede patienter (p = 0,008). Grupperne i studiet er ikke direkte sammenlignelige. Den gennemsnitlige overlevelse var 57,5 måneder (IQR = 46-70) hos patienter yngre end 60 år, mens den var 38,5 måneder (IQR = 30- 49) hos patienter ældre end 60 år (p = 0,01).</p>
Neurologiske, neuromuskulære og respiratoriske lidelser	<p>Kherani et al. beskriver overlevelse i en kohorte af børn under 1 år. I opfølgningsperioden døde 32 % af børnene i NIV-gruppen (n=8) og 8 % af børnene i invasiv-gruppen (n=2). Grupperne er ikke sammenlignelige. Fire af de otte dødsfald i NIV-gruppen forekom hos børn, hvor palliative tiltag var besluttet samtidig med indledning af NIV-behandling. Ingen af dødsfaldene skyldtes svigt af udstyr. Forfatterne konkluderede, at de fleste af dødsfaldene syntes at være et resultat af den underliggende sygdom, der fører til progressiv respiratorisk insufficiens.</p>
Livskvalitet *	
ALS	<p>I studiet af Hazenberg et al. (26) fandtes ved NIV-behandling i ALS gruppen sammenlignet med ikke-ALS gruppen signifikant mindre forbedring i sygdomsspecifik livskvalitet ved 6 mdr.s opfølgning. Sumscorer på sygdomsspecifik livskvalitet (MRF-28, SRI), depression og generisk livskvalitet var forbedret betydeligt i ikke-ALS gruppen, mens der i ALS-gruppen fandtes forringelser i den sygdomsspecifikke livskvalitet samt på depressionsscorer.</p>

Neuromuskulære lidelser	I et andet studie af Hazenberg et al. (27) fandtes overordnet set ingen signifikante forskelle i SRI-scorer fra baseline til opfølgning i hjemmerespiratorgruppen. (Der fandtes ingen signifikante forskelle mellem grupperne). Ligeledes fandtes ved opfølgning ingen signifikant forbedring i MRF-28-scoren i hjemmerespiratorgruppen. Der fandtes ingen signifikante ændringer både inden for og mellem grupperne i HADS-scoren. Inden for to domæner i SF-36-scoren i både hjemmerespiratorgruppen og hospitalsgruppen fandtes en signifikant forbedring. Inden for de øvrige seks SF-36-domæner fandtes ingen signifikante ændringer inden for grupperne.
Hospitalisering	
Neurologiske, neuromuskulære og respiratoriske lidelser	Kun et al. fandt, at 12-måneders-incidensen af ikke-elektive indlæggelser efter trakeostomi var 40 %, og 3-måneders-incidensen var 20 %. Pneumoni og tracheitis var de mest almindelige årsager til genindlæggelse. De fleste demografiske og kliniske patientkarakteristika var ikke associeret med genindlæggelse. En af de faktorer, der var forbundet med genindlæggelse, var ændringer i barnets behandling inden for 7 dage før udskrivning. Dette kunne fx være ændringer i respiratorindstillinger eller ny medicin.
Øvrige effektmål	
ALS	I studiet af Hazenberg et al. (26) fandtes, at FVC (% pred.) faldt med 9,8 ved 6 måneders-opfølgning i ALS-gruppen. PaCO ₂ (kPa) var signifikant forbedret ved 6 mdr.: 0,7 og på niveau med ikke-ALS patienter. PaO ₂ (kPa) var forbedret, dog ikke signifikant: 0,3. Forbedring i ikke-ALS-gruppen var signifikant større.
Neuromuskulære lidelser	I studiet af Hazenberg et al. (27) fandtes en ikke-signifikant mindre stigning i FVC i hjemmerespiratorgruppen og et ikke-signifikant fald i FVC i hospitalsgruppen.
Neuromuskulære lidelser	I studiet af Hazenberg et al. (27) fandtes, at dagtids-PaCO ₂ forbedredes signifikant med 0,91 kPa i hjemmerespiratorgruppen fra 6,6 til 5,7 kPa, samt med 0,72 i hospitalsgruppen (også signifikant). Der var ikke signifikant forskel mellem grupperne. PaO ₂ forbedredes også signifikant i begge grupper. Natlige værdier viste også en forbedring i begge grupper. Kherani fandt, at Mediane (IQR) pCO ₂ umiddelbart før opstart af NIV-behandling var 58,0 mmHg. Mediane (IQR) pCO ₂ efter opstart af NIV-behandling var 43,0 mmHg (p=0,0001). Mediane opfølgningstid var 0,3 måneder.

* MRF-28, SRI, SF-36, HADS: måleskalaer til vurdering af livskvalitet.

Resultater fra inkluderede primære studier understøtter resultater fra reviews om øget overlevelse blandt respiratorbrugere i eget hjem i forhold til alternative behandlingsmuligheder. Derudover findes forbedret overlevelse blandt trakeostomerede patienter i forhold til non-invasiv behandling. Resultaterne belyser desuden effekten af bulbær lidelse, som medfører væsentlig forringelse af prognosen samt alder, hvor yngre patienter har mere gavn af behandlingen. I det danske studie af Dreyer et al. fandtes overlevelseshraten betydeligt relateret til alder og behandlingsform - hvor NIV-behandling efterfulgt af invasiv respiratorbehandling havde den bedste prognose. Variabler som køn og type af ALS (bulbær, spinal og blandet) kunne her ikke relateres til overlevelseshraten.

I forhold til livskvalitet fandtes divergerende resultater. Resultaterne stammer fra to studier og refererer både generiske og sygdomsspecifikke udfald. Med hensyn til hospitalisering antyder et studie af Kun et al., at ændringer i barnets behandling op til udskrivning fra hospital medfører forøget risiko for genindlæggelse. Der ses en forringelse af lungefunktionen over tid hos ALS-patienter, en forringelse som dog mindskes ved anvendelse af respiratorbehandling. Derimod findes forbedrede blodværdier.

Studiet af Hazenberg et al. (27) er interessant i den forstand, at de undersøger, hvorvidt behandling bør igangsættes i hjemmet eller på sygehuset. Studiet viser, at hjemmebehandling i

en selekteret gruppe af patienter med et stabilt respiratorisk problem resulterer i forbedrede blodværdier og livskvalitet på et niveau sammenligneligt med sygehusbehandling. I forhold til nærværende rapport besvarer studiet dog ikke direkte nogle af de opstillede spørgsmål.

Sammenfattende skal det nævnes, at de primære studier og resultater ikke kan anvendes som dokumentation for de faktiske effektforhold, der udspiller sig i patientgrupperne som følge af HVM. Resultaterne giver et fingerpeg om retning af effekterne og kan vurderes i tilknytning til resultater fra systematiske reviews, vel vidende at de inkluderede studier her langt hen ad vejen er belastet af samme forhold.

3.6 Diskussion

I dette kapitel undersøges og vurderes effektforhold i relation til anvendelse af HVM inden for en patientgruppe med kronisk respirationsinsufficiens og behov for overvågning hele eller det meste af døgnet.

Evidensgrundlaget er præget af, at vi har med en meget sårbar patientgruppe at gøre. Det får i forskningsøjemed særlig betydning for opstilling af forsøg og studiedesign i forbindelse med vurdering af effektforhold. Oftest vil behandlingskrav og etiske forhold hindre en stringent opbygning af et forsøg med fx randomisering og blinding, og dertil ses at det i kohortestudier ikke er muligt at etablere et pålideligt sammenligningsgrundlag. Hovedparten af de studier, der undersøger resultaterne af NIV- og invasiv behandling, er observationelle kohortestudier. I nogle studier søges det at etablere en kontrolgruppe fx via historiske kontroller, patienter rekrutteret før anvendelse af NIV samt andre mere eller mindre sammenlignelige grupper. En del studier er ikke-kontrollerede og kun få RCT-studier medtages. Dette evidensgrundlag resulterer i manglende tillid til fundne estimater. Dette besværliggør overordnet set at komme frem til endelige og valide konklusioner vedrørende effekten af HVM på baggrund af litteraturen og inden for disse selekterede patientgrupper.

Der findes ligeledes stor variation og heterogenitet i patientgruppen. Det bemærkes fx i flere studier, at ALS-patienter er en heterogen patientgruppe, og at det særligt er vigtigt at erkende forskellen i patienter med bevaret bulbær funktion og patienter med bulbær dysfunktion, da resultater i forhold til respirationsstøtte kan være meget forskellige (16). For subgruppen med svær bulbær parese kunne der ikke påvises øget overlevelse, men der fandtes dog positiv effekt inden for andre effektforhold ved NIV-behandling (19). Vrijzen et al. refererer et studie fra 1993 som blandt en homogen gruppe af ALS-patienter fandt at op til 24-timers brug af NIV kunne forsinke eller ligefrem eliminere behovet for trakeostomi (21). Hvad angår ovennævnte forhold om sammenlignelighed mellem grupper ses det i studiet af Dreyer et al., at der inkluderes 192 ALS-patienter med spinale symptomer, 167 med bulbære symptomer og 50 med blandede symptomer. 146 patienter modtog ingen behandling, 173 patienter modtog NIV-behandling, 69 patienter modtog NIV-behandling efterfulgt af invasiv behandling og 21 patienter modtog invasiv behandling ved trakeostomi (25). Fordeling af behandling i forhold til symptomforekomst er ujævn, og grupperne er alene på baggrund af sygdoms karakteristika ikke sammenlignelige (selektionsbias). Desuden har alder og compliance til behandling betydning

for behandlingsresultatet. Dermed står vi tilbage med en opgørelse (en case-serie) over overlevelsen inden for fire forskellige sygdomsgrupper. I de to studier af Hazenberg et al. er grupperne heller ikke sammenlignelige. Studierne omhandler patienter med neuromuskulære lidelser eller kyfaskoliose.

I en nyligt opdateret guideline fra NICE anbefales brugen af NIV-behandling som det valg, der bør foretages ved behandling af respiratoriske lidelser¹³. I guidelinen bemærkes det, at livskvaliteten hos personer med respiratorisk svækkelse forbedres, og at behandlingen kan forlænge overlevelsen hos nogle mennesker med motorneuronsygdom (MND). Desuden anbefales, at NIV bør overvejes hos patienter, som indlægges akut med forværret respiratorisk svækkelse. Det er ofte en situation som forekommer på respirationscentrene, at patienter præsenterer sig med hurtig progression af respiratoriske symptomer, og hvor grundig planlægning af et forløb ikke har været muligt. I guidelinen understreges vigtigheden af at sikre disse mennesker mulighed for NIV-behandling, og at der findes procedurer til at iværksætte hurtig initiering af NIV-behandling. I guidelinen bemærkes, at der kan være omstændigheder, hvor NIV ikke er hensigtsmæssig, men at NIV i de fleste tilfælde er relevant behandling. Vrijzen et al. bemærker også, at før trakeostomi overvejes, bør kontinuerlig NIV ved enten mouthpiece og/eller maskebehandling afprøves. Således bemærker Vrijzen et al. også, at akutte situationer bør forebygges, hvor fx patienten trakeostomeres uden at vide om det er efter patientens ønske. Trakeostomi bør på forhånd være diskuteret mellem patient, pårørende og læge (i en relativt stabil periode af sygdomsforløbet).

Endelig skal det bemærkes, at der kun er gennemført få randomiserede studier, og at evidensgrundlaget primært er baseret på ikke-randomiserede studier. Risikoen for bias i disse studier er betydelig, og samlet set er kvaliteten af evidensgrundlaget begrænset. Overordnet begrænses studierne af selektionsbias, tilstedeværelse af confoundere og problemer med blinding. Hannan et al. bemærker især "co-interventioner", såsom indledende NIV-titrering, adgang til 24 timers telefonisk support, brug af hjemmebesøg og teknikker til at rense luftveje som værende faktorer, der formentlig påvirker resultatet i studierne.

Der er et stort behov for yderligere forskning inden for området. Det foreslås, at der udarbejdes yderligere RCT'er inden for området, men etiske forhold kan muligvis vanskeliggøre dette studiedesign (19), og der skal formentlig overvejes alternative tilgange med henblik på at afdække effekter ved behandling, evt. journalaudit, surveys og lign. Derudover bør eventuel påvirkning fra "co-interventioner" undersøges. Nogle af de faktorer, der tidligere er nævnt og foreslås som værende aktuelle i denne sammenhæng, er teknikker til at rense luftveje, planlægning af plejeforløb og overvågning om natten.

3.7 Konklusion

Selvom evidensen er begrænset i de inkluderede studier, ses en nogenlunde konsistent fordel ved anvendelse af NIV-behandling (og invasiv behandling), såfremt patienten er i stand til at tolerere behandling.

¹³ National Institute for Clinical Excellence. Motor neurone disease: assessment and management. London. 2016.

De positive effekter af HMV til behandling af respirationsinsufficiens, der rapporteres i litteraturen, er på baggrund af de refererede studier sandsynlig. På grund af et ringe datamateriale, typisk retrospektive data med begrænset antal deltagere og case-serier samt begrænsede muligheder for opstilling af relevant sammenligningsgrundlag, er evidensgrundlaget dog meget begrænset.

I de senere år er brugervenlige non-invasive respiratorer blevet tilgængelige og har bidraget til behandling af patienter med respirationsinsufficiens. Disse respiratorer er ofte veltolererede og anvendes både på hospitalet og i hjemmet. Blandt andet understøttes effekten af NIV ved ALS-patienter af nylige systematiske reviews, og indvirkningen på livskvaliteten er gunstig. Et af de mest fremtrædende studier er af Bourke et al., der som et af de eneste studier er randomiseret og kontrolleret (22). I dette studie randomiseredes 22 patienter til NIV-behandling og 19 til standardbehandling uden respirator. Studiets forfattere fandt, at hos patienter uden alvorlig bulbær lidelse forøgede NIV-behandlingen overlevelsen med 205 dage. Hos patienter med svær bulbær lidelse var overlevelsen dog ikke forbedret. I studiet af Sanjuan-Lopez et al. bemærkes, at hvis respiratorisk insufficiens er alvorlig og NIV er ineffektiv, er alternativet invasiv ventilation (30).

4 Risiko

Hovedkonklusioner

- Resultater tyder på, at trakeostomipatienter oplever flere komplikationer i forhold til patienter behandlet non-invasivt. Homogeniteten mellem de to grupper er dog tvivlsom.
- Blandt patienter med rygmarvsskade, og som ikke har behov for respirationsstøtte, beskrives blandt andet risiko for atelektase, sekretdannelse og pneumoni i forhold til patienter i HMV-behandling.
- Blandt børn der behandles non-invasivt via maske er beskrevet risici for hudskader og tryk/udfladning af ansigt.
- Kvaliteten af evidensen inden for området er meget lav.
- Der er kun fundet dokumentation for risici i meget begrænset omfang.

4.1 Introduktion

Dette kapitel omhandler bivirkninger eller utilsigtede hændelser ved brug af HMV samt sikkerheden ved relevante alternativer.

Mange studier medtager ofte ikke bivirkninger som primære effektmål, eller studiet er ikke designet til at kunne påvise en statistisk signifikant forskel i forekomsten af bivirkninger ved forskellige interventioner. Derfor medtages andre typer studiedesign, blandt andet deskriptive studier under dette domæne, således at væsentlige bivirkninger ved behandling ikke overses.

4.2 Metode

Analysespørgsmål (tabel 4.1.) afdækkes og besvares via systematisk litteraturgennemgang. I afsnit 2.6 og 2.7 samt bilag 1 er den overordnede systematiske litteratursøgning og gennemgang beskrevet. Litteraturgennemgangen baseres på nationale/internationale studier inden for området, systematiske reviews og nyere primære studier, som ikke er vurderet i forbindelse med en systematisk opsamling. Overføringsværdien af den tilgængelige litteratur til danske forhold er vurderet.

Tabel 4.1. Udvalgte spørgsmål (assessment elements) fra EUnetHTA's HTA Core model inden for domænet risiko, som danner baggrund for analysen

Område	Analysespørgsmål
Patientsikkerhed	Hvor sikker er HMV i forhold til alternativer, og er risici relateret til dosering eller frekvens af behandling??
Patientsikkerhed	Hvordan ændres forekomsten af risici over tid eller i forskellige kontekster?
Patientsikkerhed	Hvilke patientgrupper er i størst risiko ved behandling med HMV?
Håndtering af Sikkerhedsforhold	Hvilke typer monitorering er der behov for til vurdering af HMV og alternativer?

Målgruppen består af patienter, der modtager HMV på grund af respirationsinsufficiens, via trakeostomi eller via en ansigtsmaske. Det er ikke på baggrund af studierne beskaffenhed og

interventionsgruppernes begrænsede sammenlignelighed relevant at gennemføre metaanalyser. Hospitalisering og mortalitet er beskrevet i foregående kapitel. Nærværende kapitel omhandler forhold som pneumoni, slimdannelse, atelektase, fremkomst af sår og lignende. Disse forhold beskrives oftest i forhold til invasiv versus non-invasiv brug af teknologien.

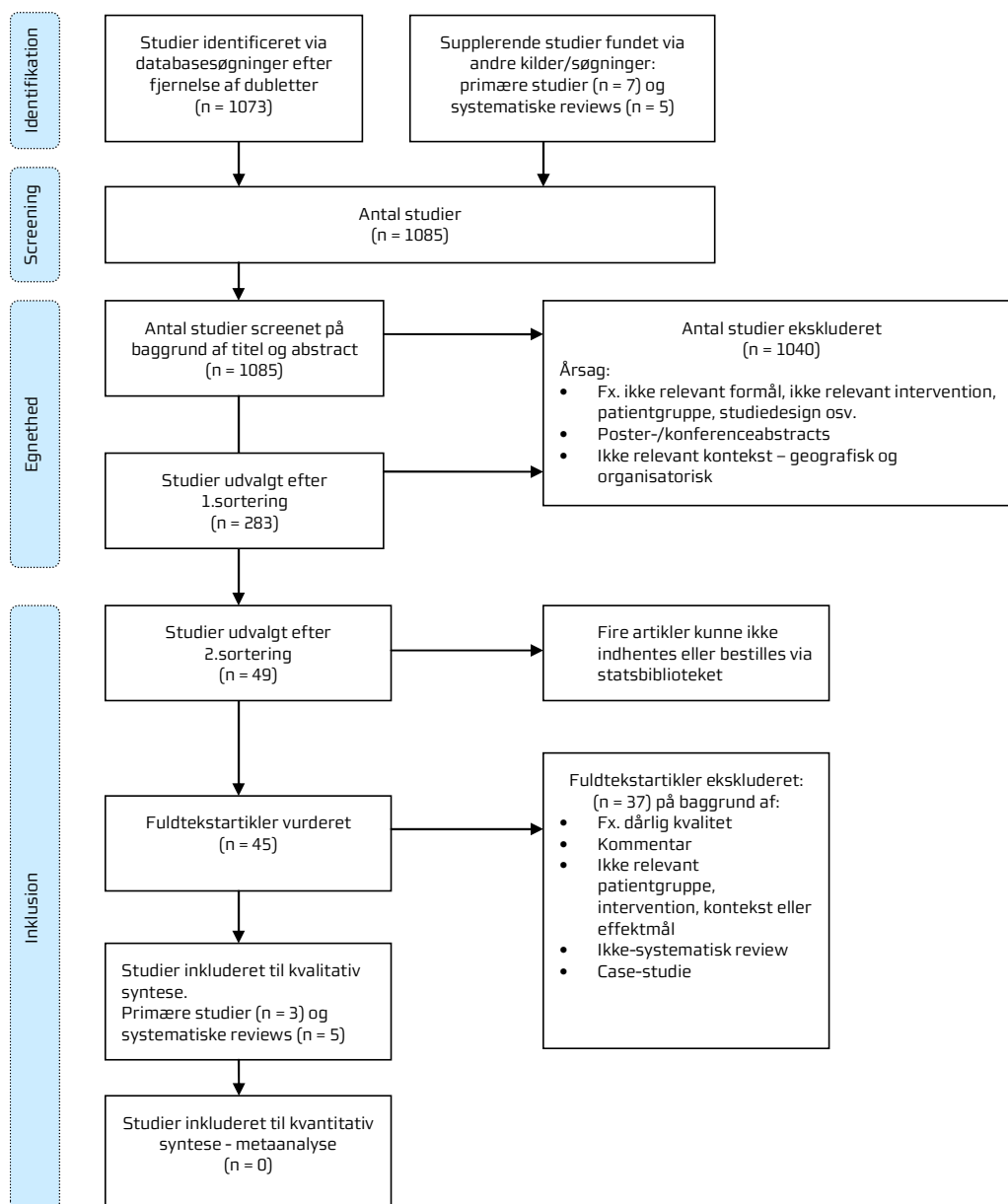
Litteraturgennemgangen tager afsæt i systematiske reviews (kliniske retningslinjer, MTV-rapporter eller systematisk review), som på baggrund af metodisk tilgang og kvalitet er vurderet relevante og egnede. Jf. figur 4.1. er der udvalgt fem systematiske reviews. Bivirkninger eller langsigtede bivirkninger vil ofte ikke blive observeret i kliniske forsøg, og derfor vil det være relevant at inddrage kohortestudier, case-kontrol-studier og endda case-rapporter eller case-serier¹⁴. Præsentation af resultater gennemføres narrativt, enkelte steder generelt og andre gange på sygdomsgruppe.

¹⁴ <http://handbook.cochrane.org/>: Afsnit 14.4: Types of studies.

4.3 Resultater

Litteratursøgningen resulterede i otte inkluderede studier (figur 4.1 og tabel 4.2 og 4.4).

Figur 4.1. Prisma-diagram over udvælgelse af studier



På baggrund af fem inkluderede systematiske reviews publiceret i årene 2010 – 2012 ekskluderes primære studier publiceret indtil 2009. Der tages højde for, at der ikke dobbelttælles på studier. Alle danske primære studier inden for søgeperioden inkluderes. Både kontrollerede og ikke-kontrollerede primære kohortestudier inkluderes.

4.3.1 Systematiske reviews

Fem systematiske reviews, heraf en tysk MTV-rapport (15) samt to kliniske retningslinjer (16,18), blev identificeret og udvalgt. For kort præsentation af studierne, se tabel 4.2.

Tabel 4.2. Karakteristik af inkluderede systematiske reviews

Forfatter Studiedesign Land, år	Formål	Patienter (n)	Søgeproces	Kvalitet
McKim et al. (16) Klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011	At vejlede patienter, plejepersonale og behandlingsenheder ift. HMMV blandt forskellige patientpopulationer	Voksne personer, der har behov for eller bruger respirator i hjemmet	Afsluttet juni 2010	AGREE-vurdering Overordnet kvalitet: 6/7
Brurberg et al. (1) Systematisk review Norge, 2012.	Undersøge effekten af HMMV hos mennesker med respirationsinsufficiens	Patienter med neuromuskulære lidelser og patienter med svigt i centrale respirationsstyring	Afsluttet juni 2012	AMSTAR-score: 8/11
Geiseler et al. (15) MTV-rapport Tyskland, 2010	Delformål: Hvilke komplikationer opstår og hvor ofte ved brug af HMMV?	Patienter med neuromuskulære sygdomme.	Afsluttet dec. 2008	AMSTAR-score: 9/11
Hull et al. (17) Klinisk retningslinje/ systematisk review Storbritannien 2012	At opsummere den tilgængelige evidens inden for feltet respiratorisk håndtering af børn med neuromuskulære lidelser samt at komme med anbefalinger som kan bidrage til at sundhedsprofessionelle kan levere patientpleje af høj kvalitet	Børn med neuromuskulære lidelser, ofte kongenitale	Afsluttet maj 2011	AGREE-vurdering Overordnet kvalitet: 6/7
Andersen et al. (18) Europæiske retningslinjer. 2012	At etablere evidensbaserede samt patient- og pårørendecentrerede anbefalinger for diagnosticering og håndtering af patienter med ALS til klinikere.	Patienter med ALS	Afsluttet feb. 2011	AGREE-vurdering Overordnet kvalitet: 4/7

De inkluderede studier i de systematiske reviews fokuserer primært på effekt af NIV-behandling, da hovedparten af patienter behandles non-invasivt internationalt.

4.3.2 Kvalitet af studier

Kvaliteten af de systematiske reviews vurderet via AMSTAR og AGREE II var generelt høj, hvorimod kvaliteten af inkluderet primærlitteratur generelt var lav. Dette begrænser tilliden til de fundne resultater.

4.4 Resultater fra systematiske reviews

I tabel 4.3. vises uddragne resultater fra de systematiske reviews. Omfanget af resultater er meget begrænset og vidner om et område, hvor der er stort behov for yderligere undersøgelser.

Tabel 4.3. Resultater fra systematiske reviews

Forfatter Studiedesign Land, år	ALS	Duchennes muskeldystrofi	Muskel- dystrofi (MD)	Rygmarvsskade
McKim et al. Klinisk retningslinje/ systematisk review Canada, 2011				Der er evidens som indikerer, at der er færre komplikationer blandt NIV-brugere ift. invasive brugere. NIV-behandling kan afhjælpe komplikationer forbundet med trakeostomi: granulomer, infektioner, trakeal perforation, stenose, fisteldannelser, svækket stemmевolumen. Patienter, der er afvænnet respirator, har derimod risiko for atelektase, sekretdannelse, pneumoni.
Brurberg et al. Systematisk review Norge, 2012		NIV ift. invasiv behandling: I et kohortestudie fandtes en højere forekomst af komplikationer, som krævede medicinsk behandling blandt patienter med trakeostomi		Ét studie indikerer en reduceret risiko for komplikationer ved non-invasiv behandling sammenlignet med invasiv behandling. Der rapporteres intet effektestimat.
Geiseler et al. MTV-rapport Tyskland, 2010	Det konstateres at komplikationer ved brug af HMV er sjældent forekommende. Et studie vedrørende pneumoni rapporterer om 1,89 pneumonitilfælde/1.000 behandlingsdage i de første 500 dage efter invasiv behandling. Dette er en hyppig årsag til genindlæggelse. Det vurderes at prognosen dog er gunstig.			
Hull et al. Storbritannien 2012	Vurdering for hudskader og i tryk/udfladning af ansigt bør udføres regelmæssigt hos børn, der bruger NIV, og masken bør justeres efter behov for at minimere disse komplikationer. Det anbefales at det er bedre at masken lækker en lille smule, end at have den siddende alt for stramt. NIV vs. invasiv behandling hos patienter med DMD: Det fandtes, at 60 % af patienterne med trakeostomi havde problemer med trakeostomien, primært relateret til sugning og granulomer. Trakeostomipatienter havde flere lungeinfektioner (38 % vs. 8 % i NIV-gruppen). Vægttab og behov for mavesonde optrådte mindre hyppigt i trakeostomigruppen.			
Andersen et al. Europæiske retningslinjer. 2012	Der refereres ikke til konkrete studier. Der omtales fordele og ulemper ved invasiv behandling. Aspiration er en af de tilstande, som kan forebygges ved invasiv behandling, mens der genereres mere sekret, risikoen for infektion og for trakeoesofagealfistel øges.			

☐ = ingen data

Resultaterne tyder på flere komplikationer blandt trakeostomerede patienter i forhold til NIV-behandlede patienter. Evidensgrundlaget er dog meget sparsomt og sammenligneligheden mellem grupperne er ringe. Blandt afvænnede patienter med rygmarvsskade beskrives blandt andet risiko for atelektase, sekretdannelse og pneumoni. Resultaterne beskrives også hos an-

dre patientgrupper. Brurberg et al. rapporterer resultater blandt poliomyelitispatienter som viser, at non-invasiv respiratorbehandling reducerer faren for komplikationer, og at non-invasiv behandling her er at foretrække frem for invasiv behandling. Dokumentationen er af lav kvalitet, og det er vanskeligt at drage sikre konklusioner. I et enkelt review nævnes risici som hudskader og tryk/udfladning af ansigt hos børn, der bruger NIV (17). Studiets forfattere fremhæver, at masken bør justeres efter behov for at minimere disse komplikationer, og at det faktisk er bedre at masken lækker en lille smule end at have den siddende alt for stramt.

4.5 Primære studier

Der er udvalgt i alt tre primære studier (tabel 4.4). Alle studier er observationelle, retrospektive studier og publiceret inden for de seneste fire år. Studierne er reelt set ikke-kontrollerede, da der ikke kan etableres et rimeligt sammenligningsgrundlag i nogen af studierne jf. nedenstående.

Tabel 4.4. Karakteristik af inkluderede primære studier

Forfatter Studiedesign Land, år	Formål	Patienter	Metode	Effekt mål og Followup	Kvalitet
Alvarez et al. (32) Ikke kontrolleret kohortestudie Spanien, 2013	At måle lækage hos stabile patienter, som modtager NIV-behandling om natten og dets indvirkning på behandlingens effektivitet.	Patienter med behov for HMV. Kun 6 ud af 41 patienter havde relevant diagnose (neuromuskulær sygdom).	Patienter blev opdelt i en gruppe, hvor udstyret kompenserede fint for lækager og en gruppe, hvor udstyret ikke kunne kompensere.	Gennemsnitlig saturation og andel af tid under 90 %. Gennemsnitlig, maks. og min. lækage. Målinger over to nætter.	Meget lav/ikke acceptabel
Kherani et al. (28) Retrospektivt kohortestudie Canada, 2015	Delformål: at sammenligne risici ved NIV-behandling over for invasiv behandling (guldstandard hos børn under 1 år).	Børn under 1 år (n=51) med forskellige neurologiske, neuromuskulære og respiratoriske lidelser.	NIV: 25 patienter Invasiv: 26 patienter	Komplikationer	Meget lav/ ikke acceptabel
Yang et al. (33) Retrospektivt kohortestudie Canada, 2013	At beskrive hændelser ift. patientsikkerhed blandt brugere af HMV og diskutere mulighederne for at forebygge skader. Det ser ikke ud til, at patientgruppen er overvåget.	Patienter med respiratoriske lidelser. 44 % havde neuromuskulære lidelser.	Data er indsamlet fra protokoller genereret via 24 timers telefon-supportfunktion, hvor patienter og hjælpere kan modtage hjælp vedrørende apparatur.	Komplikationer	Meget lav/ikke acceptabel

4.5.1 Kvalitet af studier

Kvaliteten af de inkluderede studier er ikke acceptabel eller meget lav, da det i studierne ikke har været muligt at etablere reelt sammenligningsgrundlag i forhold til interventionen 'respiratorbehandling i eget hjem'. Dermed bliver studierne resultater kun vejledende. Der er dermed høj risiko for bias, da andre forhold end interventionen kan påvirke studierne resultater,

og det er problematisk alene på baggrund af studierne at udtale sig om, hvordan den aktuelle patientgruppe ville have reageret uden den givne behandling. Dog er en absolut forekomst af eventuelle komplikationer stadig gældende og vedkommende. Disse systematiske forskelle mellem karakteristika af deltagere i forskellige interventionsgrupper er et centralt omdrejningspunkt i de inkluderede studier i nærværende rapport. Det omtales selektionsbias. Når selektionsbias frembringer ubalance i prognostiske faktorer forbundet med relevante effektmål, omtales det som confounding¹⁵. Resultaterne af ukontrollerede studier (også kaldet før-og-efter studier uden kontrolgruppe) bør behandles med forsigtighed. Fraværet af et sammenligningsgrundlag gør det umuligt at vide, hvad der ville være sket uden interventionen¹⁶.

Tabel 4.5. Resultater fra primære studier

Forfatter Studiedesign Land, år	ALS	Duchennes muskeldystrofi	Muskel-dystrofi (MD)	Rygmarvsskade
Alvarez et al. Ikke kontrolleret kohortestudie Spanien, 2013	Syv ud af 41 patienter havde større lækager end udstyret kunne kompensere for. Der fandtes dog ingen statistisk signifikant korrelation mellem lækagevariabler og natlig saturation. Der fandtes ingen signifikant forskel i mængden af lækager ved patienter med forskellige underliggende sygdom.			
Kherani et al. Retrospektivt kohortestudie Canada, 2015	Der var to mislykkede NIV-behandlinger (8 %). Et barn kunne ikke NIV-behandles, og et andet barn gik over til invasiv ventilation via trakeostomi. Blandt de otte dødsfald i NIV-gruppen var et pga. pneumoni, to var af kardiovaskulære årsager, og i et tilfælde blev behandling stoppet. Blandt NIV-behandlede fandtes hos tre patienter ansigtshypoplasi og dermatografisme. Det er vigtigt at være opmærksom på hypoplasi, når NIV-behandling igangsættes, fordi børn i 4-årsalderen kun har udviklet 60 % af ansigtsstrukturen.			
Yang Retrospektivt observationelt studie Canada, 2013	Størstedelen af patienterne, der benyttede telefontjenesten, havde en neuromuskulær diagnose (herunder patienter med muskelsvind, myopati, rygmarvsskade og ALS). 35 ALS-patienter benyttede tjenesten hvoraf 10 var invasivt ventilerede og 25 var non-invasivt ventilerede. Hovedparten (72 %) af de forhold, der omtaltes, omhandlede problemer med udstyr. Disse omhandlede blandt andet funktionsfejl i udstyr, brugerfejl, manglende tilgængelighed af udstyr og uhensigtsmæssigt valg af udstyr. Dokumentation (11 %) var et andet område, der ofte medførte problemer. Patienterne var ofte uvidende om de foreskrevne parametre/indstillinger af respirator delvis på grund af manglende dokumentation. I forbindelse med funktionsfejl er det desuden centralt, at behandling kan dokumenteres, således at udskiftning og indstilling af udstyr hurtigt kan etableres.			

Blandt de tre udvalgte primære studier omtales lækager ved NIV-behandling. Udtalte lækager kan nedsætte virkningen af eller patientens tolerance for behandling. I studiet af Alvarez et al. fandtes dog ingen korrelation til saturation (32). Kherani et al. beskriver ansigtshypoplasi hos tre ud af 25 børn behandlet med NIV, og påpeger at det er væsentligt, at brug af maske følges tæt hos børn i forhold til denne problemstilling (28).

Studiet af Yang et al. beskriver nogle af de forhold/problemer, der forekommer ved brug af HNV, og studiet kan bruges til at identificere de forhold, der typisk volder problemer (også selvom patientgruppen ikke nødvendigvis er overvåget) (33). Yang et al. konstaterer dog, at alvorligere komplikationer grundet studiets design ikke opdages og medtages i deres hændelser, men ses i akutmodtagelser. Yang et al. anbefaler blandt andet følgende: Udvikling af

¹⁵ <http://handbook.cochrane.org>.

¹⁶ <http://handbook.cochrane.org/>: 21.4: Assessment of study quality and risk of bias.

standardprocedurer, herunder dokumentation og uddannelse på tværs af alle ordinerende organisationer med henblik på at støtte overdragelse og udskrivning af respiratorpatienter samt muliggøre elektronisk dokumentation med delt adgang blandt patient, kommunale plejepersoner, sygehuspersonale, praktiserende læger og ordinerende centre. Dette med henblik på at støtte kommunikation på tværs af alle teammedlemmer, forbedre anvendeligheden af udstyr, være opmærksom på begrænsninger ved hjemmebehandling samt begrænsninger hos patienter og plejepersonale samt udvikle rapporteringssystem til beskrivelse af hændelser.

4.6 Diskussion

Hensigten med nærværende kapitel er at belyse risici forbundet med brug af HMV. Mortalitet og morbiditetsforhold behandles i kapitel 3. Der foreligger kun begrænset information om/evvidens for risici ved brug af respiratorordninger. Der er således en mangel på oplysninger vedrørende patientsikkerhed relateret til medicinsk skrøbelige patienter, som har behov for respiratorbehandling (33). Studiemassen er meget begrænset, og der savnes velgennemførte (gerne randomiserede) studier. Dermed er risikoen for bias i disse studier betragtelig, og kvaliteten af evidensgrundlaget er samlet begrænset.

Overordnet set tyder resultaterne på flere komplikationer blandt patienter med trakeostomi i forhold til NIV-behandlede patienter samt hudskader og tryk/udfladning af ansigt hos børn, der bruger NIV. I den norske rapport fra Kunnskabssentret konkluderes: "På tværs af diagnoser tyder resultaterne på, at invasiv 'langtids mekanisk ventilation' kan medføre større risiko for komplikationer og indlæggelser i forhold til non-invasiv ventilation. Kvaliteten af denne dokumentation er imidlertid meget lav, primært fordi konklusioner er baseret på observationsstudier, hvor grupper ikke nødvendigvis er prognostisk balancerede" (1).

Der savnes således yderligere dokumentation/velgennemførte deskriptive studier til at belyse mulige risici ved HMV, og det har kun i begrænset omfang været muligt at besvare kapitlets analyse spørgsmål. Blandt andet har forhold relateret til dosering eller frekvens af behandling samt forekomst af risici over tid eller i forskellige kontekster været svære at afdække.

4.7 Konklusion

I nærværende kapitel beskrives risici forbundet med brug af HMV på baggrund af relevant evidens. På baggrund af den metodiske tilgang er det kun muligt at belyse relevante komplikationer i begrænset omfang, da ikke-dokumenterede forhold ikke er beskrevet, hvilket ikke nødvendigvis er ensbetydende med, at disse forhold ikke er relevante. Evidensgrundlaget for nedenstående konklusioner er meget begrænset.

Overordnet set tyder resultaterne på, at trakeostomipatienter oplever flere komplikationer i forhold til non-invasivt behandlede patienter. Blandt patienter med rygmærskade, som ikke har behov for respirationsstøtte, beskrives blandt andet risiko for atelektase, sekretdannelse og pneumoni i forhold til patienter i HMV-behandling. Blandt børn, der behandles non-invasivt via maske, er beskrevet risici for hudskader og tryk/affladning af ansigt, og i de udvalgte pri-

mære studier nævnes risiko for lækager ved non-invasiv behandling. I et studie fremhæves det, at masken bør justeres efter behov for at minimere risikoen for tryk/udfladning af ansigt, og at det faktisk er bedre, at masken lækker en lille smule end at have den siddende alt for stramt.

5 Patient- og pårørendeperspektiver

Hovedkonklusioner

Patienterne oplever respiratorbehandling som en livreddende foranstaltning og som medvirken- de til forbedringer af deres helbredstilstand. Patienterne fortæller, at de på den ene side i løbet af en rum tid opnår en følelse af kontrol med teknologien, og på den anden side også oplever en fortsat usikkerhed fordi de pga. fortsatte ændringer i deres tilstand skal tilpasse sig en ny situa- tion, og fordi de kan have vanskeligt ved at forlige sig med deres tilværelse med HMV, herunder at vænne sig til en tilværelse, hvor de konstant er omgivet af sundhedsprofessionelle. Det er af- gørende for patienternes oplevelse af styrket livskvalitet, at behandlingen finder sted i hjemmet frem for i institutionelle rammer. Det betyder mulighed for at opretholde almindelige rutiner og aktiviteter, og bidrager til følelsen af en normal tilværelse. Begreber som autonomi, selv- bestemmelse og indflydelse på egen tilværelse fremstår i patienternes beretninger som betyd- ningsfulde for livskvaliteten. Samtidig beskriver patienterne det også som en 'afhængig uaf- hængighed', fordi den konstante tilstedeværelse af personlige hjælpere er en forudsætning for deres oplevelse af kontrol. Patienterne efterlyser mere attraktivt design af HMV apparatur og har forslag til udvikling af teknologien, som i højere grad tager højde for, at det anvendes i hjemmet og kan tilpasses individuelt behov. I forhold til samarbejde med sundhedsprofessionelle og per- sonlige hjælpere understreger patienterne vigtigheden i en tilgang, hvor de lyttes til og bliver mødt med interesse som 'hele personer'. De finder det væsentligt at være samarbejdspartnere til sundhedsprofessionelle, herunder at de selv kan indgå i ansættelse og træning af hjælpere.

Pårørende (her primært til børn med HMV) beretter om en stressfyldt hverdag, hvor bekymring og angst for barnets fremtid fylder. Det er en hverdag, som er præget af stram styring og allige- vel stor uforudsigelighed. Forældrene føler sig isolerede og også utilstrækkelige i forhold til bar- nets søskende. Forældrene giver udtryk for, at tilstedeværelse af hjælpere i hjemmet er bela- stende, og at de på trods af hjælpere alligevel føler sig ansvarlige for omsorg for barnet.

Studierne er gennemført i forskellig geografisk og organisatorisk kontekst, hvilket kan have væ- sentlig betydning for patienters og pårørendes erfaringer. Det er desuden på baggrund af studier- ne ikke muligt at vurdere, om der er forskelle i patienterfaringer knyttet til diagnose eller ventila- tionstype. Desuden findes kun få studier om patienter, som fravælger HMV. Fremtidig forskning bør tilrettelægges, så betydning af diagnosegrupper samt type af HMV kan undersøges. Endvidere efterlyses yderligere forskning om fravalg af HMV.

5.1 Introduktion

Kapitlets fokus er patienters og pårørendes erfaringer, oplevelser og vurdering af anvendelse af respiratorbehandling i eget hjem. Lofaso et al. viser i en undersøgelse, at der er forskelle mellem patienters og sundhedspersonales opfattelser af, hvad der karakteriserer en velfunge- rende HMV (34). På lignende vis beskriver Ballangrud et al. uoverensstemmelser mellem sund- hedspersonales og patienters vurderinger af patienternes helbredstilstand, som patienterne med HMV kan opleve som værende god, mens sundhedspersonale konkluderer det modsatte (35). Patienters perspektiver udgør derfor væsentlige bidrag til forståelse og forbedring af kva- liteten af såvel teknologien som levering af sundhedsydelser forbundet med teknologien.

Patientgruppen inkluderer voksne med kronisk respirationsinsufficiens og behov for invasiv eller non-invasiv respiratorbehandling i eget hjem med overvågning hele eller det meste af

døgnet. Pårørende er familie, venner eller andre fra personens netværk, der yder støtte og omsorg til den pårørende, som modtager ventilationsbehandling i hjemmet.

Forskningsspørgsmålene fremgår af tabel 5.1. Spørgsmålene er formuleret med afsæt i emner og analysespørgsmål fra 'Patients' and Social Aspects Domain', EUnetHTA's HTA Core-Model.

Tabel 5.1. Forskningsspørgsmål vedrørende patient- og pårørendeperspektiver på HMV

Område	Analysespørgsmål
Patientperspektiv	Hvilke erfaringer har patienterne med at leve med HMV?
Patientperspektiv	Hvilke forventninger og ønsker har patienterne til HMV, og hvilket udbytte forventer de at opnå med HMV?
Patientperspektiv	Hvordan opfatter og oplever patienterne HMV?
Patientperspektiv	Hvordan oplever pårørende HMV, og hvilken belastning udgør HMV for dem?

Resultaterne bygger på et systematisk litteraturstudie, hvorfor der kan være relevante emner inden for dette område, som ikke besvares her.

5.2 Metode

Analysespørgsmålene besvares via systematisk litteraturgennemgang, baseret på nationale og internationale systematiske reviews samt nyere primære studier. Der henvises til afsnit 2.6 og 2.7 samt bilag 1 for beskrivelser af den overordnede systematiske litteratursøgning, udvælgelse og kvalitetsvurdering. Det skal dog her bemærkes, at to af emnerne i AMSTAR (vurdering af systematiske review) i nærværende analyse er modificeret med henblik på en tilpasning til vurdering af kvalitative reviews. Det drejer sig om spørgsmål 9, som i AMSTAR vedrører anvendelse af metoder til syntese af studiernes resultater, hvor det i nærværende kvalitetsvurdering omhandler, hvorvidt datasyntesen er tydelig og gennemskuelig. Og det drejer sig om spørgsmål 10, omhandlende publikationsbias, som i nærværende kvalitetsvurdering er ekskluderet, fordi der endnu ikke findes metoder til identifikation af publikationsbias i forhold til kvalitative studier. Der er således en maksimal score på 10. De inkluderede studier er kodet i Nvivo i henhold til analysespørgsmålene. Analysen er foretaget ved hjælp af tematisk kondensering på tværs af studierne med henblik på at afsøge mønstre, ligheder og forskelle i temaer og problematikker indenfor studiepopulationen.

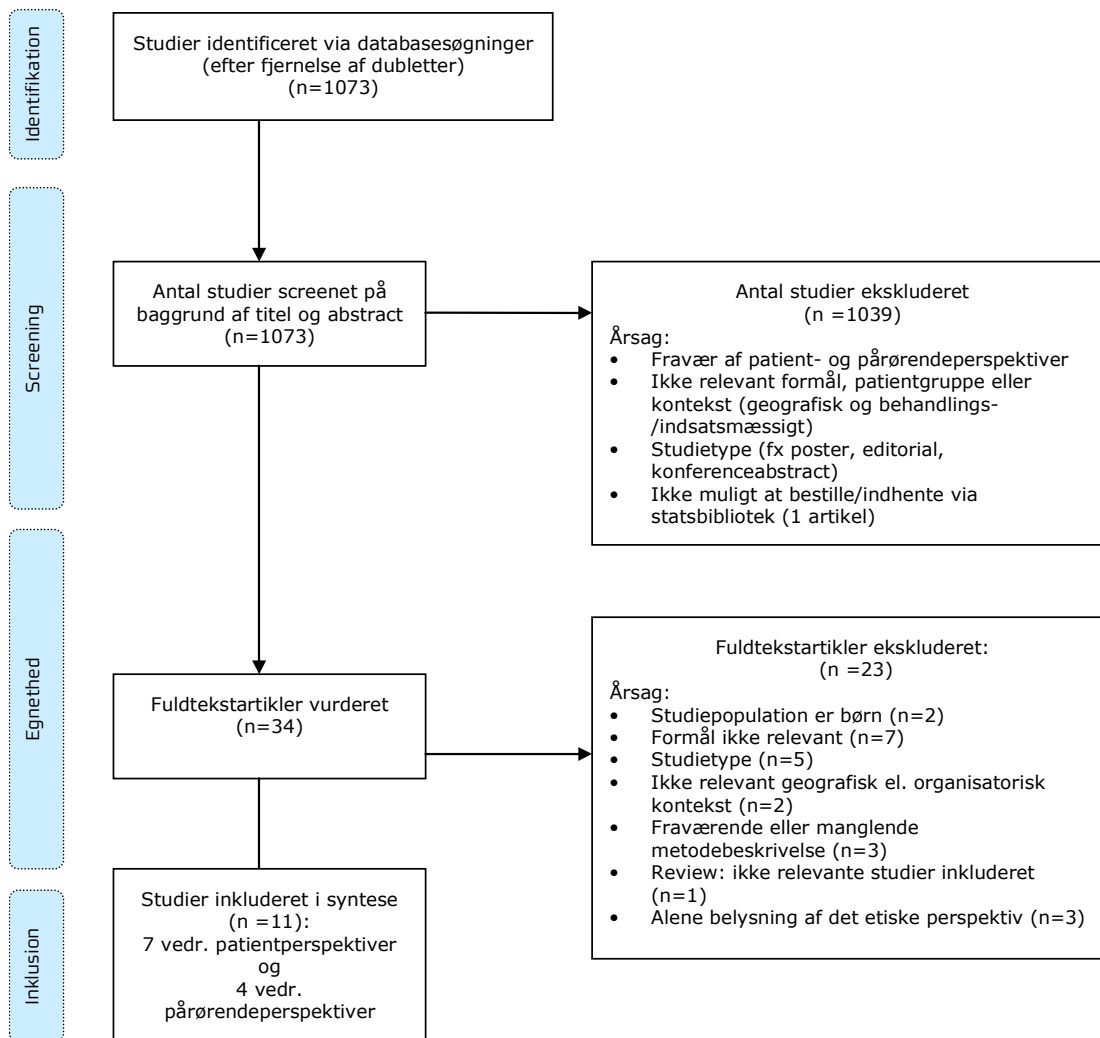
5.3 Resultater

5.3.1 Litteratursøgning

Litteratursøgningen resulterede i 11 inkluderede studier (figur 5.1). Syv studier omhandlede patientperspektiver, og fire omhandlede pårørendeperspektiver. Et af disse studier er et review, og der er yderligere inkluderet relevante primærstudier, som er publiceret efter inklusion af studier til dette review. Inklusionen er begrænset til kvalitative studier. Vedrørende pårørendeperspektiver findes en række studier, som benytter sig af et kvantitativt design, hovedsageligt surveys. Disse studier beskriver især korrelation mellem sociodemografiske profiler og

sundhedsprofiler, undersøger depressions- og stressniveauer samt omfang af fysisk, psykisk og økonomisk byrde blandt de pårørende¹⁷.

Figur 5.1. Prisma-diagram over udvælgelse af studier



Generelt er de inkluderede studiers kvalitet god. I forhold til studier, som beskæftiger sig med **patientperspektiver** er fire vurderet til at være af høj kvalitet, dvs. få eller ingen metodiske begrænsninger, tre af middel kvalitet og ingen af lav kvalitet. Argumentation for placering af studierne ved middel kvalitet fremgår af tabel 5.2. Fælles for studierne er dog, at spørgsmål vedrørende datamætning og ophør af dataindsamling ikke beskrives i nævneværdigt omfang; antal inkluderede personer synes at være besluttet på forhånd. Desuden reflekteres kun i få studier over forskerens rolle i indsamling og håndtering af data. Studierne benytter sig alle af individuelle interview til dataindsamling, og tre gennemfører opfølgende interview (36-38).

¹⁷ Der blev fundet 5 studier. Referencer kan fås ved henvendelse til forfatterne.

I forhold til studier omhandlende **pårørendeperspektiver** er det systematiske review vurderet til at være af middel kvalitet, og de tre primærstudier til at være af høj kvalitet (tabel 5.2). Her gør det sig generelt gældende, som ved studierne af patientperspektiver, at spørgsmål vedrørende datamætning samt betydning af forskerens rolle ikke fremgår eksplicit. Et enkelt af studierne har en mangelfuld beskrivelse af informanterne (39), men det vurderes ikke at anfægte kvaliteten i forhold til metode, datafremstilling, resultater mv. I tabel 5.2 gives en oversigt over studiernes indhold og karakteristika.

Tabel 5.2. Studiernes indhold og karakteristika

Patientperspektiver					
Artikel	Formål	Metode	Inklusionskriterier	Resultat og konklusion	Studiets kvalitet
Ballangrud et al.(35): Clients' experiences of living home with mechanical ventilator. 2008 Norge	- At øge forståelse for, hvordan personer oplever deres liv med HMV - Hvorledes patienter, som er afhængige af HMV, erfarer pleje og supervision fra sundhedspersonale	Induktiv kvalitativ tilgang. Individuelle interviews (gennemført i hjemmene)	Inklusion med henblik på maksimum variation: Voksne, ensartet fordeling af køn, diagnoser og funktionsniveau samt min. ½ års erfaring med HMV. 20 personer blev inviteret, hvoraf 10 accepterede.	To hovedtemaer blev identificeret (fordelt på fire kategorier og 10 sub-kategorier): 1. HMV forøger livskvalitet: et liv der er værd at leve (bedre velbefindende; kontrol over egen livssituation; mulighed for at leve et normalt og aktivt liv). 2. Succes med HMV er afhængig af kompetencer og kontinuitet blandt sundhedspersonalet (varierende kompetencer blandt personale; betydning af information og læring). Konklusion: HMV medfører bedre kontrol over egen dagligdag. Kompetent personale og kontinuitet blandt personale er af betydning for succes.	Kvalitet vurderes til middel: - Omfattende frafald, hvis årsag og konsekvens ikke beskrives - Citater er sparsomme, og underbygger ikke argumentationen i tilstrækkelig grad - Er ikke teoretisk velfunderet
Briscoe & Woodgate(36): Sustaining self: The Lived Experience of Transition to Long-Term Ventilation 2010 Canada	- At opnå nuanceret beskrivelse af erfaringer med overgang fra spontan vejtrækning til vedvarende respiratorbehandling	Semistrukturerede, dybdegående interviews Opfølgende interview over en periode på 4 mdr. SF-12-spørgeskema om helbreds-tilstand	Forskellige diagnoser. Ventilationsbehandling min. 6 timer/døgnet, min. 6 mdr.s erfaring med ventilationsbehandling (deltagere har 2-21 års erfaring).	Deltagere oplever 'opretholdelse af selvet' samt 'autonomi' ved brug af ventilationsbehandling. Overgangen er en kompleks og dynamisk proces, hvor fysiske, mentale og spirituelle tilpasninger pågår	Kvalitet vurderes til at være høj.
Dreyer et al.(25): Life with home mechanical ventilation for young men with Duchenne muscular dystrophy 2010 Denmark	- At beskrive patientperspektiver på og erfaringer med et liv med HMV	Narrative interviews Fænomenologisk-hermeneutisk analytisk tilgang.	21 personer tilfældigt udvalgt blandt i alt 60 patienter, som modtog HMV fra et ambulatorium. Inklusionskriterier: - Diagnosticeret med Duchennes muskeldystrofi - Aldersspredning (18-40 år) (1 person afslog; 1 person blev ekskluderet pga. fejlagtig diagnose).	Deltagerne er glade for/tilfredse med HMV, fordi det er livsforlængende og giver mulighed for et aktivt og uafhængigt liv. Beslutningsprocessen om, hvornår man skal acceptere invasiv HMV, er vanskelig Invasiv ventilation frem for non-invasiv ventilation foretrækkes. Teknisk udstyr bør tilpasses mulighed for at leve et aktivt liv.	Kvalitet vurderes til at være høj.

Patientperspektiver					
Artikel	Formål	Metode	Inklusionskriterier	Resultat og konklusion	Studiets kvalitet
				Tilpasning til ventilation bør være en del af træningsprogram for hjælpere.	
<p>Dyrstad et al.(40):</p> <p>Factors that influence user satisfaction: tracheotomies home mechanical ventilation users' experience 2012</p> <p>Norge</p>	<p>- At beskrive selv-rapporteret livssituation blandt brugere, som er afhængige af invasiv HMV.</p> <p>- At identificere faktorer der er associeret med brugertilfredshed.</p>	<p>Beskrivende eksplorativt studie;</p> <p>Individuelle interviews.</p> <p>Tematiseret analyse.</p>	<p>Rekruttering i praksis, som er specialiseret i HMV;</p> <p>Personer, som er afhængig af invasiv HMV døgnet rundt.</p> <p>Forskellige diagnoser og funktionsniveau.</p> <p>6 personer deltog.</p>	<p>Tre temaer blev identificeret:</p> <ol style="list-style-type: none"> 1. Behov for skræddersyet information pga. forskelle i individuelle behov. 2. Sensitivitet ift. beslutningstagning vedrørende HMV er vigtig. 3. Opbygning af tillid og fortrolighed. <p>Brugererfaringer varierer afhængigt af alder, kontakt med sundhedsfagligt personale, ressourcer.</p> <p>Der er behov for at udvikle og målrette strategier, der understøtter øget brugertilfredshed.</p>	<p>Kvalitet vurderes til middel:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Det angives ikke, hvor mange der inviteres, og evt. frafald kendes således ikke. - Relaterer sig i ringe omfang til anden forskning på området - En lille studiepopulation, som inkluderer forskellige diagnoser, og det fremgår ikke om de fundne temaer er lige afgørende for alle. <p>(Der er tale om et eksplorativt studie som kan afdekke mulige relevante emner).</p>
<p>Lindahl et al.(37):</p> <p>On Being Dependent on Home Mechanical Ventilation: Depiction of Patients' Experiences Over Time 2006</p> <p>Sverige</p>	<p>- At beskrive den levede erfaring med brug af HMV i hverdagslivet.</p>	<p>Fænomenologisk-hermeneutisk analytisk tilgang.</p> <p>Followupinterviews</p> <p>Narrativ analyse.</p>	<p>Bredde i diagnoser;</p> <p>Invasiv og non-invasiv ventilation;</p> <p>- Min. ventilationsbehov 12 timer/døgnet.</p> <p>13 personer deltog.</p>	<p>Studiet fandt tilvænning af HMV repræsenteret ved en form for legemliggørelse (embodiment).</p> <p>Studiet identificerede forskelle i udviklinger over tid hen imod succesfuld brug af ventilator.</p> <p>Lidelse ift. brug af HMV er ofte relateret til en oplevelse af mangelfuld omsorg og/eller oplevelse af mangelfulde kompetencer blandt de professionelle.</p>	<p>Kvalitet vurderes til at være høj; dog mangelfuld (indirekte) beskrivelse af rekruttering af deltagere.</p> <p>Datagrundlag fra dette studie analyseres yderligere i Lindahl et al. 2010</p>

Patientperspektiver					
Artikel	Formål	Metode	Inklusionskriterier	Resultat og konklusion	Studiets kvalitet
<p>Lindahl et al.(38):</p> <p>Patients' suggestions about how to make life at home easier when dependent on ventilator treatment – a secondary analysis 2010</p> <p>Sverige</p>	<p>- At beskrive patienters opfattelser af HMV-behandling og pleje samt forslag til forbedring af dette.</p>	<p>Analyse af data (kvalitative interview) fra tidligere gennemført undersøgelse (Lindahl et al. 2006).</p> <p>Induktiv analytisk tilgang; kvalitativ indholdsanalyse.</p>	<p>Variation i diagnoser;</p> <p>Invasiv og non-invasiv ventilationsbehandling;</p> <p>Ventilationsbehandling min. 12 timer/døgnet;</p> <p>Behandlingsvarighed fra 1-43 år; ca. halvdelen af deltagere har kortvarig og halvdelen langvarig erfaring.</p> <p>35 personer deltog.</p>	<p>Seks temaer blev identificeret:</p> <ol style="list-style-type: none"> 1. Proces i forb. med opstartfase 2. At forbinde selvet med ventilator 3. At opleve hjemmet som et skærmet sted 4. At opsøge viden og forståelse 5. At opbygge tillid til teknologien 6. Behov for tætte/gode relationer til sundhedspersonale. <p>Der er behov for øget brug af patienterfaringer og -opfattelser vedrørende HMV blandt sundhedsprofessionelle, i forskningssammenhæng samt for udvikling af brugervenligt design af ventilatorsystemer.</p>	<p>Kvalitet vurderes til at være høj; dog mangelfuld (indirekte) beskrivelse af rekruttering af deltagere.</p>
<p>Sundling et al.(41):</p> <p>Patients' with ALS and caregivers' experience of non-invasive home ventilation 2007</p> <p>Sverige</p>	<p>- At beskrive ALS-patienters (og deres pårørendes) erfaringer med non-invasiv ventilationsbehandling</p>	<p>Individuelle interview;</p> <p>Indholdsanalyse.</p>	<p>Patienter diagnosticeret med ALS;</p> <p>Non-invasiv ventilationsbehandling.</p> <p>7 personer deltog</p>	<p>Tre temaer blev identificeret:</p> <ol style="list-style-type: none"> 1. At blive fortrolig med ventilator/ventilation 2. At tage imod/acceptere ventilator 3. At være i ventilationsbehandling døgnet rundt. <p>At kunne bo i hjemmet var vigtigt. Teknologien opleves både som en byrde og som en lettelse (bedre velbefindende).</p>	<p>Kvalitet vurderes til middel:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Beskrivelse af udvælgelseskriterier og rekruttering samt analysestrategi er mangelfuldt beskrevet - Citater er sparsomme, og underbygger ikke argumentationen i tilstrækkelig grad.

Pårørendeperspektiver					
Artikel	Formål	Metode	Inklusionskriterier	Resultat og konklusion	Studiets kvalitet
<p>Lindahl & Linblad(42):</p> <p>Family Members' Experience of Everyday Life When a Child Is Dependent on a Ventilator: A Metasynthesis Study 2011</p>	<p>At beskrive og analysere kvalitative studier, som undersøger pårørendes erfaringer med at have et barn som er afhængig af HMV.</p>	<p>Metasyntese</p>	<ul style="list-style-type: none"> - Publicerede peer-reviewede, kvalitative studier samt afhandlinger - Publiceret i perioden 1998-2007 - Engelsksprogede studier/afhandlinger 	<ul style="list-style-type: none"> - Forældre er i en fortsat læringsproces omkring organisering af dagliglivet samt tilpasning af familiens behov ift. det syge barns behov - Søskende spiller en væsentlig og aktiv rolle i omsorg for den syge søskende og i hjemlige forpligtelser - De fleste problemer vedrørende et MNV-afhængigt barn i hjemmet løses, men der er behov for at tilpasse hjælpen til hvert enkelt unikke familieliv - Måden som sundhedsprofessionelle og personlige hjælpere viser deres kompetencer og engagement i familien på har stor betydning for familiens velbefindende. 	<p>Kvaliteten vurderes til medium:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Kvalitetsvurderingen af de inkluderede studier er uklar - Liste over ekskluderede studier findes ikke. <p>Dog er metode og analysen systematisk og gennemskuelig, og fremstillingen af resultater velskrevet.</p>
<p>Dybwik et al.(39):</p> <p>"Fighting the system": Families caring for ventilator-dependent children and adults with complex health care needs at home. 2011</p> <p>Norge</p>	<p>At undersøge pårørendes erfaringer med at yde kontinuerlig omsorg til et familiemedlem, som er afhængig af HMV</p>	<p>Grounded Theory-tilgang og dybdegående individuelle interviews</p>	<p>Det HMV-afhængige familiemedlem har trakeostomi, komplekse omsorgsbehov, og mekanisk ventilation er påkrævet hele tiden eller hovedparten af dagen</p>	<p>Centrale temaer:</p> <ul style="list-style-type: none"> - At 'kæmpe imod systemet' - Mangelfuld kompetence og kontinuitet blandt hjælpere/sundhedsprofessionelle - At være uundværlig - 'Værd at kæmpe for' <p>Familiernes erfaringer var uafhængige af om det syge familiemedlem var et barn eller en voksen</p> <p>Der er stor forskel mellem familiernes forventninger og hvad sundhedssystemet tilbyder.</p> <p>Det er nødvendigt at reducere familiernes byrder samt at gøre behandlinger tilgængelige i hjemmet. Samtidig er omkostningsreduktion nødvendig, og det er derfor vigtigt at forholde sig til etiske dilemmaer.</p>	<p>Kvaliteten vurderes til at være høj.</p>

<p>Lindahl & Linblad(43):</p> <p>Being the Parent of a Ventilator-Assisted Child: Perception of the Family-Health Care Provider Relationship When Care Is Offered in the Family Home 2013</p> <p>Sverige</p>	<p>At undersøge betydningen af professionel støtte i hjemmet blandt forældre til HMV-afhængige børn</p>	<p>Fænomenologisk-hermeneutisk analytisk tilgang.</p> <p>Narrative interviews.</p>	<p>- Forældre til børn, som er afhængig af mekanisk ventilation og bor i hjemmet</p> <p>- Erfaring med at modtage min. to års professionel støtte i hjemmet</p> <p>- I stand til at forstå og tale svensk</p>	<p>At modtage professionel støtte i hjemmet opleves som at være i risiko for og/eller udsat for kontrol over familielivets privathed.</p> <p>Den professionelle støtte virkede mere som et resultat af tilfældigheder end af kompetent og fornuftig planlægning.</p> <p>I velfungerende tilfælde var den professionelle støtte karakteriseret ved gensidig relation og en oplevelse af den professionelle som en del af familien.</p>	<p>Kvaliteten vurderes til at være høj.</p>
<p>Mah et al.(44):</p> <p>Being the lifeline: The parent experience of caring for a child with neuromuscular disease on home mechanical ventilation 2008</p> <p>Canada</p>	<p>At undersøge og beskrive livserfaringer blandt forældre til børn som er afhængige af HMV.</p> <p>At gøre sundhedsprofessionelle mere opmærksomme på hverdagslivsperspektiver blandt disse forældre</p>	<p>En fænomenologisk tilgang</p> <p>Interviews (indledende og opfølgende interviews med forældrene)</p>	<p>Forældre til børn med neuromuskulære lidelser, som har anvendt HMV min. seks måneder.</p> <p>Barnet er ml. 2-18 år.</p> <p>Barnet tilses i en klinik for neuromuskulære lidelser</p> <p>Den primære omsorgsperson forstår og taler engelsk</p>	<p>Centrale temaer er:</p> <p>- Forældrene fungerer som livline for deres syge barns liv og livskvalitet.</p> <p>- Familiernes liv ændres drastisk i forb. med beslutningen om HMV.</p> <p>- Forandringerne bliver over tid 'det nye normale', men forældrene oplever en vedvarende følelse af tab og usikkerhed</p> <p>Forældrene ønsker at blive anerkendt som eksperter i deres samarbejde med de sundhedsprofessionelle.</p> <p>Et godt samarbejde med sundhedsprofessionelle er af væsentlig betydning for forældrenes velbefindende.</p>	<p>Kvaliteten vurderes til at være høj.</p>

5.3.2 Patientperspektiver

I alt 75 personer indgår i studierne omhandlende patientperspektiver fordelt på 22 kvinder og 44 mænd (ni personers køn fremgår ikke af studiet: Lindahl et al. 2010). Aldersgruppen er 18-81 år. De inkluderede personer har behov for ventilation hovedparten af døgnet, heraf 37 i døgnventilation. De fleste benytter invasiv ventilation (i alt 44 personer), mens 31 personer benytter maske. Tre af studierne (35,37,38) inkluderer både invasivt og non-invasivt ventilerede deltagere. De fleste studier – fem – inkluderer blandede diagnoser, mens to af studierne inkluderer patienter med specifikke diagnoser, henholdsvis ALS (41) og Duchennes muskeldystrofi (45). I tabel 5.3 gives en oversigt over studiepopulationen i studierne omhandlende patientperspektiver.

Tabel 5.3. Studiepopulation i de inkluderede studier vedrørende patientperspektiver

Artikel	Diagnose	Ventilationstype	Ventilationsomfang	Antal deltagere
Ballangrud et al.	Blandede diagnoser	NIV (6 personer) samt invasiv (4 personer)	2 døgnventilation; 2 nat/del af dagen; 6 nat	10 deltagere (3 kvinder, 7 mænd); Alder: 18-75 år
Dyrstad et al.	Blandede diagnoser	Invasiv	døgnventilation	6 personer (3 kvinder, 3 mænd); Alder: 37-78 år
Sundling et al.	ALS-patienter	NIV (maske)	Fra 2-20 timer (gennemsnitlig forskel 12 timer) Brug af ventilation 3-15 måneder	7 personer (2 kvinder, 5 mænd); Alder: 45-75 år. Derudover otte pårørende
Briscoe et al.	Blandede diagnoser	Invasiv	8: døgnventilation; 3: nat	11 (9 kvinder, 2 mænd); Alder: 40-88 år
Dreyer et al.	Duchennes muskeldystrofi	Invasiv	Døgnventilation	19 personer (mænd); Alder 21-40 år
Lindahl et al. 2006	Blandede diagnoser	NIV (11 deltagere) samt invasiv (2 deltagere)	Nat samt ved hvile om dagen	13 (5 kvinder, 8 mænd); Alder: 52-81 år
Lindahl et al. 2010	Blandede diagnoser	NIV (18 deltagere) samt invasiv (4 deltagere)	2 døgnventilation; 20 natventilation, heraf 10 delvist om dagen	22 (heraf 13 personer fra Lindahl 2006; dvs. 9 'nye' patienter)

I studierne resultater skelnes der ikke mellem invasivt og non-invasivt ventilerede deltagere, mellem planlagt og akut igangsat respiratorbehandling samt mellem diagnoserne (med undtagelse af to studier om henholdsvis ALS-patienter (41) og patienter med Duchennes muskeldystrofi (45)). Det er derfor ikke muligt at vurdere, om der er forskelle i patienterfaringer knyttet til ventilationstype og diagnose.

5.3.3 Erfaringer med at leve med HMV

I dette afsnit præsenteres patienternes erfaringer med at leve en tilværelse med HMV.

På tværs af studierne fortæller patienterne, at de oplever respiratorbehandling som et vendepunkt i deres tilværelse og som kulmination på en livstrussel. De beskriver respiratorbehandling som en livreddende foranstaltning, hvad enten behandlingen initieres akut eller har været planlagt gennem længere tid. Generelt fortæller patienterne om omfattende forbedringer af deres helbredstilstand og fysiske velbefindende: de føler sig mindre trætte, har bedre søvn, mindre hovedpine, reduktion af træthed, mere energi og øget udbytte af samvær med andre (35,36,38,41,45). Mange patienter giver udtryk for at deres livskvalitet styrkes. I flere studier beskriver patienterne en følelse af en genvinding af selvet, når de har overkommet angst ved og vænnet sig til, at respiratorbehandling overtager eller assisterer egen vejrtrækning (36-38). Samtidig er den gennemgående fortælling, at patienterne ikke oplever at have haft et valg. Nogle beskriver, at de følte sig presset til at modtage HMV og efterfølgende har vanskeligt ved at forlige sig med beslutningen. Andre er glade for beslutningen, og beskriver, at de ikke har et alternativ, fordi de oplever positive effekter af behandlingen. Fortællingerne spænder fra 'meget glade for ventilationsbehandling, ikke at ville leve uden, ikke at opleve det som et problem' (45) til 'at føle sig presset, ikke at have et alternativ, være fanget i masken' (41). Tidsperspektivet er væsentligt i patienternes fortællinger. De beretter på den ene side om en overgangsproces, som afsluttes, og på den anden side samtidig om en tilværelse i konstant forandring og overgange. Det afsluttede tidsperspektiv handler for de fleste om at opnå en følelse af kontrol ved at lære at beherske den nye teknologi, eksempelvis at få etableret praksisrutiner med udstyret, at lære at håndtere problemer med teknisk udstyr såsom fejlsøge problemer ved trakeostomituber eller andet udstyr, eller at vænne sig til en ny situation, eksempelvis maskinel overtagelse af ens vejrtrækning. Samtidig taler patienterne også om en vedvarende overgang, både i form af at deres situation kan ændre sig, og de derfor ofte skal tilpasse sig en ny situation, og fordi de kan have vanskeligt ved at forlige sig med deres tilværelse med HMV. Det er således også en vedvarende overgang, som er spundet ind i på den ene side 'en tilværelse som er værd at leve' (35) og på den anden side rodfæstet i 'kampe om tab og genvinding af selvet' (36). Trods tilvænning til teknologien beretter patienterne således også om et liv i fortsat usikkerhed. Det fremgår eksempelvis, at patienterne har en vedvarende bekymring for, om 'ting kan gå galt': de fortæller om tekniske fejl, der medfører livstruende situationer, fx frakoblet/afbrudt trakeostomitube, alarmklokker som ikke virker, sugning af sekret som ikke foregår som personen ønsker det, og de fortæller om frygt og angst for, hvad fremtiden bringer: sygdommens progression, afhængighed af respiratorbehandling, for nogles vedkommende tidspunkt for afslutning af respiratorbehandling, om de fortsat vil kunne blive boende i hjemmet (35,36,38,45). For mange handler det også om at komme overens med en tilværelse, hvor sundhedspersonale og især personlige hjælpere spiller en væsentlig rolle i deres dagligdag (35,37,40,41).

Tidsaspekt i form af et liv i vedvarende overgang opleves forskelligt blandt patienterne. Nogle forliger sig med situationen, hvilket især gør sig gældende for patienter med Duchennes mus-

keldystrofi, som beskriver deres tilværelse med HMV som bevægende sig fra angst og bekymring til relativt uproblematisk, og hvor teknologien efterhånden bliver en del af dem selv. De beskriver, at HMV giver dem mulighed for at leve en normal tilværelse, hvor fritidsaktiviteter, familie og venner og for nogle job er vigtige og mulige aspekter. Andre derimod beskriver, at tilværelsen med HMV betyder, at de lever et mindre aktivt og et andet liv end ønsket, og at de oplever en konstant 'trussel mod selvet', et vedvarende identitetsarbejde og tilpasning til nyt hverdagsliv (fx (35,41)). Andre igen beskriver en tilværelse, som er præget af en balance mellem følelse af, at 'livet går videre' og en tilbagevendende oplevelse af, 'at livet skal genskabes' (fx (36)).

Mulighed for at behandlingen finder sted i hjemmet frem for i institutionelle rammer fremstår i patienternes fortællinger som helt afgørende for deres oplevelse af styrkelse af livskvalitet ved HMV. Patienternes beretninger om betydning af behandling i hjemmet er spundet ind i en fortælling om på samme tid afhængighed og autonomi: afhængighed af respiratorbehandling og af personlige hjælpere, for de fleste døgnet rundt, og uafhængighed, fordi man bor i eget hjem. Selvom patienterne er afhængige af HMV og af hjælpere i hjemmet, oplever de sig også som uafhængige, fordi de behandles i eget hjem. På tværs af studierne fremgår begreber som autonomi, selvbestemmelse, kontrol over og indflydelse på egen tilværelse som højt værdsatte fordele, der er en mulighed, når behandling finder sted i hjemmet. Behandling i hjemmet har også stor betydning for ønsket om at minimere afhængigheden af andre. At være i stand til at leve i hjemmet og her at kunne opretholde almindelige rutiner og aktiviteter bidrager til følelsen af en normalisering af tilværelsen (35,38,40,41,45).

Det giver nogle særlige problematikker, at brug af teknologien finder sted i hjemmet. Her fylder især den konstante tilstedeværelse af personlige hjælpere meget. Patienterne beskriver det som udfordrende at blive vant til og at acceptere at have andre mennesker omkring sig konstant. Følelse af autonomi og selvbestemmelse over egen tilværelse er tæt knyttet til deres relation til og håndtering af hjælpere. For patienterne er det vigtigt at have indflydelse på, hvordan, hvornår og af hvem hjælpen tilbydes, herunder hvordan hjælpere trænes til opgaven; det er vigtigt at indgå i et ligeværdigt samarbejde med hjælpere og sundhedsprofessionelle; og det er vigtigt, at hjælperne agerer forholdsvis 'usynligt' i hjemmet (35). Samtidig beskrives de personlige hjælpere også som bidragende til en følelse af et normalt og aktivt liv, fordi de betyder at man kan blive boende i hjemmet og dermed til autonomi og kontrol over egen tilværelse. Mange patienter beskriver, at deres partnerskab med professionelle i hjemmet først bliver velfungerende, når det lykkes at manifestere en ret til selvbestemmelse og kontrol over egen tilværelse (35-38,40).

Patienterne giver også udtryk for, at eftersom ventilationsbehandling på mange måder er knyttet til hospitalsbehandling, har HMV betydning for, hvordan 'hjem' opfattes. Hjem er traditionelt det sted, hvor man føler sig tryk, er autonom og tager egne beslutninger, men patienterne oplever, at hjemmet med deres HMV-brug ændres og ikke længere ubetinget er deres autono-

me domæne. Her har design af hjælpemidler, som er passende for hjemmebrug frem for udelukkende hospitalsbrug, stor betydning for, hvordan det er muligt at tilpasse behandlingsteknologien et hjemligt udtryk ((38) se nedenstående afsnit).

5.3.4 Forventninger og ønsker til HMV

På baggrund af patienternes erfaringer med et liv med HMV præsenteres i det følgende afsnit patienternes ønsker til håndtering af HMV og deres forslag til udvikling af teknologien.

Beslutninger om HMV finder sted i en afgørende livssituation, og patienterne finder det væsentligt, at information specifikt målrettes patienten for at støtte deres overvejelser og beslutninger om igangsættelse af HMV. De fortæller, at tydelig instruktion og anden adgang til information, særligt i den indledende fase, er en forudsætning for, at de kan føle sig trygge med deres respiratorbehandling. Nogle efterlyser manualer i form af video og andet billedmateriale, som præsenteres fra et brugerperspektiv og i et hverdagsprog. Patienterne har oplevet stor bredde i informationsstrategier, lige fra hvad de betegner som optimal information til en oplevelse af ikke at modtage information overhovedet. Samtidig fremgår det også, at patienternes informations- og træningsbehov varierer individuelt lige fra at ønske et meget grundigt kendskab til teknologien til blot at skulle kende 'tænd-sluk- funktionen' (35,37,38,45).

Studiernes resultater peger på, at et velfungerende liv med HMV, fra patienternes synspunkt, hænger tæt sammen med tilfredsstillende træning af de personlige hjælpere samt af backup fra- og kontinuitet blandt de sundhedsprofessionelle. Patienterne finder det væsentligt, at de selv, og evt. deres familier, kan indgå aktivt i træning af hjælpere med henblik på at tilgodese individuelle behov og ønsker til funktion og brug af den mekaniske ventilation (fx (35,36,45)). Patienterne efterlyser også, at de i højere grad betragtes som aktive samarbejdspartnere til sundhedsprofessionelle med hensyn til planlægning af behandling og deres nye livssituation i hjemmet. Det fremgår, at patienterne føler sig som eksperter i forhold til egne kropslige reaktioner og symptomer og har erfaring med teknologiens mangler og problematikker i forhold til tilpasning til egne behov; eksempelvis tilpasning af maske, trakeostomi, valg af ventilationsmodel og organisering af hjælpen. Patienterne efterlyser en tilgang, hvor de lyttes til og bliver mødt med interesse som 'hele personer'. Patienterne anerkender, at involvering og samarbejde nok kan være tidskrævende, men at det er afgørende for etablering af velfungerende respiratorbehandling (35,37,40).

Patienterne efterlyser mere attraktivt design af HMV-apparatur, som i højere grad tager højde for, at det anvendes i hjemmet og kan tilpasses individuelle behov og smag. Ringe design bidrager til følelsen af at være ramt af sygdom, det signalerer 'hospitalsbrug', og det kan begrænse ens udfoldelsesmuligheder, eksempelvis rejser som kompliceres af tunge og klodsede ventilatorer (fx (35,38)). Patienterne har mange forslag til udvikling af teknologien, så den tilpasses brugerens behov og anvendelse i hverdagslivet; såsom afbrydere placeret let tilgængelige steder (på kroppen eksempelvis), så betjening kan foregå fra fx sengen, fjernbetjening i

forhold til iltkoncentration, forbedring af remme til fastholdelse af maske for bedre at regulere luftfugtighed, batteridrevne, letvægts ventilatorer, masker, der er nemme at tilslutte og som hindrer tryksår, bedre fungerende luftfugter mm.

Mulighed for at have kontrol over egen hverdag er, som nævnt i ovenstående afsnit, knyttet til at kunne bo i eget hjem, men det fremgår også af studierne, at kontinuitet blandt hjælpere og sundhedsfagligt personale har stor betydning for følelsen af autonomi og kontrol over egen tilværelse. Det begrundes blandt andet i, at hjælpen er tilpasset individuelt behov og forudsigelighed (fx (35-38,40)). Et af studierne sammenligner tilfredshed blandt patienterne mellem dem, som har personlige hjælpere, og dem som tilbydes hjemmesygeplejerske (dele af døgn-net). På trods af forskelle i formel kompetence, hvor personlige hjælpere er ufaglærte, giver patienterne udtryk for større tilfredshed med de personlige hjælpere (35). Det begrundes med, at hjælperne trænes og vejledes af patienten i hjemmet, så hjælpen er målrettet individuelle behov. Den måde, som hjemmesygeplejerskers arbejde er organiseret på, synes vanskeligt foreneligt med imødekomme af de komplekse behov blandt brugere af HMV. Samtidig undrer mange af patienterne sig over den vidensforskel, der er mellem specialister i hospitalsregi og hjemmeplejen og/eller de personlige hjælpere. HMV-kompetencer og færdigheder centrerer i hospitalsregi, og patienterne føler en vis usikkerhed forbundet med, hvad de oplever som mangelfuldt kendskab til HMV-håndtering i hjemmene, eksempelvis opretholdelse af hygiejneforholdsregler ved håndtering af trakeostomi (40).

5.3.5 Opfattelse og oplevelse af HMV

I dette afsnit beskrives patienternes opfattelse og forståelse af HMV som teknologi betragtet. Teknologien har sit virke i grænsefladen mellem brugeren af HMV og den omgivende verden, og patienternes forståelse og opfattelse af teknologien har derfor stor betydning for deres handlinger, relationer og aktiviteter i tilværelsen med HMV. Der kan konstateres en flertydighed i forståelse af teknologien. I flere studier fremhæver patienterne, at teknologien bliver markering af og symbol på sygdom og på en degenererende krop. Det gælder bogstaveligt, eksempelvis når en dårligt tilpasset maske forårsager tryksår og mærker, når øjne bliver tørre og røde på grund af utæt ilttilførsel, når kroppen beskadiges på grund af trakeostomi. Og det gælder følelsesmæssigt ved for eksempel at være afhængig af pasning og omsorg fra andre, ved at mange aktiviteter og handlinger besværliggøres eller ikke kan lade sig gøre på grund af ubekvem og klodset teknologi og ved angst og bekymring for teknologiens funktion (35-38,40,45).

I patienternes fortællinger om deres forståelse og opfattelse af HMV fremstår der på tværs af de inkluderede studier to temaer: Nogle beskriver HMV som så naturlig en del af dagligdagen, så det ikke længere associeres med alvorlig sygdom. Teknologien beskrives som en del af deres personlighed. Det implicerer, at teknologien opfattes som et legemliggjort apparatur, og det kan demonstreres eksempelvis ved at placere rør, kanyler og andet udstyr synligt, så at teknologien bliver en synlig del af dem, fx (37,45). Andre beskriver derimod deres opfattelse

af teknologien som et teknisk hjælpemiddel, uafhængigt af dem selv, som skal sikre vejrtrækning (38,41). De fortæller, at kroppen måske nok tilpasser sig teknologien, fordi der hurtigt indtræffer en mærkbar bedring i helbredstilstanden, men at det følelsesmæssigt og psykologisk er vanskeligt at tilvænne sig teknologien, fordi det medfører et tab af identitet og personlighed. Nogle håndterer det ved så vidt muligt at skjule brugen af HMV, fx placere kanyler og rør under tøj, eller de kan forsøge at tøj matcher apparaturet, så teknologien ses mindst muligt; andre har en strategi med at tøj er så specielt og udtryksfuldt, så det overdøver apparatur (45).

5.3.6 Pårørendeperspektiver

I dette afsnit besvares analysespørgsmålet om pårørendes erfaringer og oplevelser med at være pårørende til en person med behov for HMV. Pårørende er i de fundne studier primært forældre, hvorfor denne term anvendes i det følgende.

Som nævnt er der inkluderet fire studier til besvarelse af spørgsmålet: et review samt tre primærstudier. I reviewet indgår 12 studier med i alt 276 personer: 60 fædre, 190 mødre, 24 søskende og 2 bedsteforældre. I de tre primærstudier indgår i alt 44 personer, fordelt på 30 familier repræsenteret ved 28 mødre, 15 fædre og en datter. I alt indgår således 320 pårørende i de inkluderede studier. Studierne har alle inkluderet blandede diagnoser blandt HMV-brugere, såvel invasiv som non-invasiv HMV dog altid min. halvdelen af dagen. De pårørendes sociodemografiske karakteristika er beskrevet med forskellige variable i studierne, hvorfor det ikke er medtaget i denne syntese. På tværs af studierne kan der identificeres fem temaer, som beskrives nedenstående.

Et liv i fortsat usikkerhed men også opmærksomhed på vigtige værdier i livet

Forældrene beretter om et hverdagsliv, der på den ene side er stærkt præget af bekymring for barnets fremtid og angst for barnets død, en næsten ubærlig virkelighed og stressfyldt hverdag. På den anden side kan hverdagen også være kendetegnet ved stærk samhørighed i familien, prioritering af at bruge tid sammen og at få det bedste ud af en hverdag, som ikke vil ændre sig (39,42). Familierne giver udtryk for, at det afspejler en konstant opmærksomhed på deres syge familiemedlems sårbarhed (39,44).

Et krævende forældreskab

Forældrene fortæller, at deres hverdag er præget af stram styring og planlægning samt ringe mulighed for fleksibilitet på grund af varetagelse af støtte og omsorg til det syge barn samtidig med indfrielse af den øvrige families behov (42-44). På trods af stram organisering af hverdagen er dagligdagen alligevel præget af stor usikkerhed og tab. Den syge pårørendes helbredstilstand kan ændre sig, eller ting kan pludselig gå galt, så forældrene skal også være beredte på at kunne løse og håndtere uforudsigelige situationer (42,44). Mange forældre beretter også om en følelse af utilstrækkelighed over for det syge barns søskende, fordi det syge barn kræver meget opmærksomhed og ressourcer (42,43). Forældrenes tilværelse er desuden belastet

af mangelfuld søvn. Forældrene beretter endvidere om en tilværelse i isolation, fordi der kun i ringe grad er overskud til aktiviteter uden for hjemmet og til udøvelse af personlige interesser. Især mødrene giver udtryk for, at det er vanskeligt at kombinere et arbejdsliv med omsorg for et respiratorafhængigt barn (42-44). Endelig er familiernes dagligdag karakteriseret ved tilstedeværelse af sundhedsprofessionelle i hjemmet. Forældrene fortæller eksempelvis, at supervision af teknisk udstyr og supervision af og samarbejde med hjælpere og sundhedsprofessionelle 'fylder' i hverdagen (39). Forældrene giver udtryk for, at de på trods af hjælp fra og samarbejde med sundhedsprofessionelle og personlige hjælpere konstant føler sig ansvarlige for barnets omsorg (39), og at de fungerer som en livline for barnets velbefindende (42,44).

Konstant læringsproces

Engagement i og forpligtelse til at drage omsorg for og være ansvarlig for barnets velbefindende i døgndrift betød en oplevelse af at befinde sig i en konstant læringsproces, eksempelvis i forhold til at tilpasse den øvrige familie og det HMV-brugende barns behov til hinanden, at lære at varetage barnets skiftende behov, at lære at være forælder og sygepasser samtidig (42,43). Disse processer handler om at lære at søge informationer, at få adgang til hensigtsmæssig professionel støtte, at organisere ressourcer bedst muligt, at organisere den professionelle hjælp i hjemmet bedst muligt samt at lære at 'professionalisere' sit sprog om barnets pasning og behov i forbindelse med samarbejdet med de sundhedsprofessionelle. Forældrene oplever dette som en hård og stressfyldt opgave oven i deres arbejde med pasning af barnet, men er samtidig også motiveret af at opnå og opretholde autoritet som barnets omsorgsgiver (42).

Forældrene fortæller om en læringsproces, der er knyttet til at transformere generel viden til viden tilpasset det individuelle barns særlige behov for pasning og tilrettelæggelse af hjælp. Den unikke viden er nødvendig for at kunne afkode pludselige ændringer i barnets sundhedstilstand, fortæller forældrene (42,44). Forældrene beretter i den forbindelse, at de føler sig som de bedste omsorgspersoner for barnet (43), fordi 'de ved bedst', men at det også kan forårsage konflikter mellem dem og de sundhedsprofessionelle eller personlige hjælpere, som tager sig af barnet (39,42-44). Det er konflikter, forældrene oplever som en diskrepans mellem generel, objektiv viden over for individualiseret, erfaringsmæssig viden (42).

Konstant læringsproces: Spændingsfelt mellem hjem og teknologi/behandling

Familierne fortæller, at betydning af 'hjem' ændrer sig med installation af apparatur til pasning af det syge barn og med tilstedeværelse af professionelle hjælpere. Betydning af hjemmet som et særligt rum og sted for autonomi og privatliv transformeres, når den private sfære domineres af teknologiske hjælpemidler og hjælpere (43). Forældrene giver udtryk for, at det er et vilkår, men også at de eksempelvis forsøger at ændre hjemmets indretning for at kamuflere institutionsudseende (42,44).

Betydning af hjem ændres også som konsekvens af tilstedeværelse af sundhedsprofessionelle og andre hjælpere. Flere forældre giver udtryk for, at hjemmet bliver skueplads for offentligt tilsyn og vurdering. Det rører ved følelsen af autonomi i hjemmet og opleves som en potentiel trussel (43). Forældrene fortæller om ændring af samværsformer og familiens privatliv, så eksempelvis emotionelle og følelsesmæssige udtryk af både positiv og negativ art tilbageholdes. Generelt er teknologien og den professionelle hjælp indspundet i dobbeltheden: på den ene side er det afgørende for opretholdelse af barnets liv og for muligheden for at have en velfungerende hverdag, og på den anden side medfører det også omfattende begrænsninger for og ændringer af tilværelsen. Selvom nogle forældre beskriver teknologien og den professionelle hjælp i hjemmet som 'det nye normale', er det alligevel en normalitet, som konstant forhandles og udfordres (39,44).

Samarbejde med sundhedsprofessionelle

Familierne er optaget af at både de og deres HMV-afhængige familiemedlem får mulighed for så så vidt muligt at leve en normal tilværelse og en tilværelse, hvor egne interesser og ønsker kan udleves. Samtidig er familiernes trivsel i høj grad afhængig af avanceret teknologisk udstyr og offentlig hjælp. Det er et samarbejde, som mange beskriver 'som en kamp mod systemet' (39), og/eller som udfordrende, fordi der er tale om sårbare magtbalancer mellem familierne og de sundhedsprofessionelle (43). Mange familier giver eksempelvis udtryk for at de oplever at skulle føre en kamp for ressourcer, eksempelvis tilstrækkelig hjælp i hjemmet, teknologiske hjælpemidler, økonomisk kompensation for deres manglende mulighed for erhvervsarbejde, eksempelvis i form af de kan honoreres for deres pasning af barnet i hjemmet (39). Temaer, som er medvirkende til at bidrage til den oplevelse, er, at de oplever i ringe grad at blive involveret i beslutningstagning; manglende mulighed for/interesse for at tage hensyn til individuelle behov (39,43); mangelfulde kompetencer og diskontinuitet blandt hjælpere/sundhedsprofessionelle (43). Nogle forældre beretter også om velfungerende samarbejder og om 'de gode tilfælde', der er karakteriseret ved gensidige og tætte relationer, ved oprigtig interesse og anerkendelse fra de sundhedsprofessionelles side, og hvor de sundhedsprofessionelle opleves som en del af familien (43).

Søskende

Søskende oplever i lighed med forældrene, at de må leve med tab af forældrenes opmærksomhed samt at de skal påtage sig omsorg og pasning af deres HMV-brugende søster/bror samt pålægges ansvar. Det betyder, at de oplever at leve et meget anderledes liv end deres kammerater. De oplever også en til tider spændt atmosfære i hjemmet, og nogle rapporterer om søvnforstyrrelser og begrænsninger i deres muligheder for fritidsaktiviteter mv. (42).

5.4 Konklusion og diskussion

Formålet med patient- og pårørendeperspektivet i nærværende MTV var at undersøge erfaringer, vurderinger og oplevelser af at leve med HMV blandt brugere af HMV og pårørende til brugere af HMV.

Studier med et kvalitativt design er inkluderet. Der blev inkluderet 11 studier – syv omhandlende patienternes perspektiv og fire omhandlende pårørendes perspektiv. Litteraturstudiets resultater vurderes troværdige, da samtlige studier blev vurderet til at have høj eller middel kvalitet.

I forhold til patienternes perspektiv beskrives tilvænning og brug af HMV på tværs af de inkluderede studier som en kompleks og dynamisk proces, inden for hvilken fysiske, mentale og psykologiske tilpasninger finder sted. HMV erfares på den ene side som et vendepunkt i tilværelsen og som en livreddende foranstaltning, der forbedrer helbredstilstand, øger livskvaliteten, giver mere energi, og på den anden side opleves det (generelt) som en konstant udfordring, et tab af identitet og selvværd og/eller et vedvarende arbejde med at genskabe selvet og et liv, hvor angst og bekymring fylder. Patienterne oplever HMV som en 'afhængig uafhængighed': afhængighed af pleje, hjælp og omsorg fra sundhedspersonale, personlige hjælpere og pårørende samt afhængighed af teknologisk hjælpemiddel, som for manges vedkommende betyder begrænsninger i muligheder og aktiviteter. Samtidig er det også en afhængighed, der er et vilkår for at kunne leve et uafhængigt liv i selvbestemmelse og autonomi, fordi såvel teknologi som hjælpere er nødvendige for at kunne deltage i hverdagsaktiviteter og gøre mål. Teknologien repræsenterer således en dobbelthed i form af frihed og fangenskab (35). Samtlige patienter finder, at det, at behandlingen finder sted i hjemmet frem for i institutionelle rammer, er altafgørende for bedring af livskvalitet og for oplevelsen af autonomi og selvbestemmelse over egen hverdag. Samtidig giver det særlige betingelser, når brug af teknologien finder sted i hjemmet. Her nævner patienter især den konstante tilstedeværelse af personlige hjælpere og/eller sundhedsfagligt personale som en nødvendighed men samtidig en udfordring af såvel emotionelle, personlige og etiske dimensioner. Også udvikling af design og forbedret funktion af hjælpemidlet, så det i højere grad tilpasses individuelle behov og en hjemlig atmosfære efterlyses af patienterne. Også de pårørende giver udtryk for, at tilstedeværelsen af teknologisk udstyr samt sundhedsprofessionelle og private hjælpere i hjemmet udfordrer betydningen af hjem som stedet for autonomi og begrænser udfoldelse af privatliv og en hjemlig sfære.

Patienterne understreger et behov for, at de dels i højere grad betragtes som samarbejdspartnere, dels at tilrettelæggelse af behandling og hjælp i højere grad individualiseres på grund af kompleksiteten i deres situation. Det indbefatter, at de ønsker at blive aktivt involveret i planlægning og tilrettelæggelse af behandling og i træning af den personlige hjælp i hjemmet. Et ønske om at blive betragtet som samarbejdspartner samt individualisering af indsatsen gør sig også gældende blandt de pårørende. De pårørende beskriver, at de er afhængige af professio-

nelle i hjemmet, men samtidig at de professionelles tilstedeværelse i hjemmet og det generelle samarbejde med dem er udfordrende og til tider problematisk. De pårørende nævner især, at de føler deres autonomi truet og deres viden om det respiratorafhængige barn underkendt, at de oplever mangelfuld hensyntagen til individuelle behov, at de i højere grad ønsker at blive involveret i beslutningstagning, og at de finder mangelfulde kompetencer og diskontinuitet blandt hjælpere/sundhedsprofessionelle. Andre familier beretter om velfungerende samarbejder, som er karakteriseret ved nære relationer og interesse for familien fra de sundhedsprofessionelles side.

Det skal understreges, at studierne finder sted i forskellig geografisk og dermed organisatorisk kontekst. Den organisatoriske kontekst beskrives ikke i studierne omhandlende patient- og pårørendeperspektiver. Imidlertid kan det have stor betydning for patienternes og de pårørendes oplevelser og erfaringer, hvordan tilrettelæggelse og træning af de personlige hjælpere i hjemmet er organiseret. I Danmark ansætter og træner respiratorbrugere og/eller deres pårørende eksempelvis ofte selv de personlige hjælpere, og der er således mulighed for individualiseret oplæring og tilpasning til individuelle ønsker og behov i tilrettelæggelse af hjælpen. Det kan have væsentlig betydning for oplevelse af samarbejdet, vurdering af inddragelse, tilfredshed med hjælp i hjemmet mv.

Endelig fremgår det, at familiernes tilværelse med et HVM-afhængigt barn er kendetegnet ved et hårdt og krævende hverdagsliv, som er præget af angst og bekymring for barnet, stor ansvarsbyrde forbundet med pasning af barnet, og manglende ressourcer til at varetage søskendes behov på tilfredsstillende vis, arbejdsliv og socialt liv. På den anden side beretter de også om tæt samhørighed i familierne og en hverdag, hvor man er meget opmærksom på at udleve vigtige værdier i tilværelsen. Forældrene fortæller om en konstant læringsproces i forhold til at lære at leve et godt liv med HVM i hjemmet.

På nær to af studierne vedrørende patientperspektiver er studiepopulationerne karakteriseret ved blandede diagnoser samt invasiv/non-invasiv behandling, og der skelnes i opgørelser af resultater ikke mellem disse. Det er derfor ikke muligt at vurdere, om patient- og pårørende erfaringer er afhængige af type af respiratorbehandling, eller om forskelle i diagnoser kan have en betydning. To af studierne beskæftiger sig med henholdsvis ALS-patienter og patienter med Duchennes muskeldystrofi. Der synes blandt de to grupper at være forskelle i opfattelse af såvel helbredstilstand som tilvænning til- og accept af HVM, men det er ikke muligt at vurdere, om det gør sig generelt gældende, da de øvrige studier også inkluderer Duchennes muskeldystrofi og ALS-patienter. Det vil derfor være relevant, at fremtidig forskning tilrettelægges, så betydning af diagnosegrupper samt type af HVM kan undersøges. Det inkluderede review (42) efterspørger yderligere forskning med henblik på at opnå viden om og forståelse for familiernes vedvarende lærings processer, og hvorledes det er knyttet til familiernes ressourcer samt støtte i hjemmet. Longitudinelle studier med anvendelse af observationer og interview anbefales.

Der er fundet en enkelt undersøgelse, som beskæftiger sig med fravalg af NIV i et studie af patienter med 'motorneuronsygdom' (46). Disse patienter begrundede deres fravalg af teknologien med et ønske om at opretholde selvet/identitet, at de vurderer de ikke har behov for respiratorbehandling samt med negative erfaringer med sundhedsydelse i relation til NIV-behandling. I forlængelse heraf fremgår det erfaringsmæssigt fra de tre respirationscentre, at omkring 10 % af patienterne ikke oplever at respiratorbehandling er en god løsning på deres problemer. De oplever udfordringer og tilbagevendende problemer, og over tid ønsker de alligevel ikke at leve med de begrænsninger, det medfører at være i respiratorbehandling, blandt andet begrundet i at det er besværligt, at de føler sig overvågede og oplever mange konflikter med systemet. De oplever at respiratorbehandling alligevel ikke er løsningen på deres problem. Fravalg af ventilationsbehandling er potentielt væsentlig viden i forbindelse med visitations- og beslutningsprocesser. Der er derfor behov for mere viden på dette område.

6 Etiske aspekter

De etiske problemer i relation til respiratorbehandling i eget hjem ved kronisk respirationsinsufficiens har kun været direkte behandlet i forholdsvis få videnskabelige publikationer. Det betyder imidlertid ikke, at der ikke har været opmærksomhed omkring etiske problemer i denne bestemte sammenhæng. Klinikere og forskere på feltet berører i mange sammenhænge centrale etiske spørgsmål vedrørende brugen af respiratorer, men uden at de etiske problemer bliver et selvstændigt fokus, og uden at der gennemføres mere systematiske diskussioner eller analyser af etiske dilemmaer i relation til respiratorbehandling.

Nationale og kulturelle forskelle, forskelle i organisering af sundhedsvæsen og behandlingspraksis mm. betyder, at de klinisk-etiske problemer, herunder også etiske problemer i relation til respiratorbehandling i eget hjem, formuleres og diskuteres forskelligt. Forslag til, hvordan etiske dilemmaer på området kan søges håndteret, afspejler nationale, kulturelle og professionsrelaterede forskelle. Det er derfor ikke muligt at lave meningsfulde sammenfatninger af de undersøgelser og løsningsforslag, som fremlægges i de forskellige forskningsbidrag på området. Derimod udgør analyserne, som det fremgår af det følgende, nyttigt materiale til kortlægning af en række centrale problemer på området.

6.1.1 Hjemmerespirator i brugerperspektiv

I en dansk undersøgelse (45) er 19 patienter med muskelsvind og brugere af HVM blevet interviewet om deres erfaringer. Interviewene er gjort til genstand for en kvalitativ analyse. Deltagerne beskriver, hvorledes respiratorerne har reddet deres liv, og de omtaler indsatsen som det bedste, der er hændt dem i deres liv. Invasiv behandling blev foretrukket af dem, som både har prøvet invasiv og non-invasiv behandling. Det fremhæves, at en række såvel menneskelige som tekniske faktorer var en forudsætning for vellykket behandling. Den kvalitative undersøgelse munder ud i en anbefaling af, at det i samfundet diskuteres, om evnen til at trække vejret er en grundlæggende menneskelig rettighed, og om mennesker med muskelsvind derfor har en ret til et liv med respirator i eget hjem.

6.1.2 Er det en menneskeret at kunne få hjælp til at trække vejret?

Forslaget om at gøre brugen af respiratorer i hjemmet til et spørgsmål om menneskerettigheder må vurderes i forhold til brugen af rettighedsbegrebet i relation til velfærdsstaten i almindelighed og sundhedsvæsenet i særdeleshed. Deltagerne i den danske undersøgelse rapporterer at have fået deres livskvalitet forbedret i en sådan grad, at de betegner adgangen til brug af HVM som det bedste, der er sket i deres liv. Brugen af HVM har befriet dem for en række alvorlige begrænsninger i deres daglige livsførelse og har således udvidet deres personlige frihed.

I tråd med den almindelige brug af begrebet om menneskerettigheder bør anbefalingen imidlertid omformes, så den gælder retten til at få hjælp til at trække vejret og ikke selve funktionen at trække vejret. Der vil i givet fald være tale om en rettighed i samme forstand, som det er en rettighed at få adgang til behandling i tilfælde af sygdom eller fx adgang til forskellige former for støtte i tilfælde af arbejdsløshed, nærmere bestemt støtte i et omfang som sikrer den syge eller arbejdsløse mulighed for fortsat at kunne deltage i det samfundsmæssige liv på et rimeligt eller menneskeværdigt niveau.

Det er ikke en menneskeret at være sund, og det er ikke en menneskeret at have arbejde, men (i vores form for velfærdsstat) er det en ret at få bestemte former for støtte ved sygdom eller ledighed, så den enkelte så vidt muligt kan deltage i livet i samfundet. Hvis hjælp til at trække vejret anerkendes som en menneskerettighed, så følger det også heraf, at der påhviler samfundet og dets politiske autoriteter en forpligtelse til at sikre de praktiske og institutionelle forudsætninger for, at borgerne kan udøve de bestemte funktioner. Det er i vores samfund implicit anerkendt, at vi har en ret til at kunne læse og skrive og regne. Men hvis denne rettighed er samfundsmæssigt og politisk accepteret, så påhviler der også samfundet en forpligtelse til at sikre pædagoger, skoler og uddannelsesmæssige faciliteter, som sikrer, at de nævnte funktioner kan udvikles og udøves. Hvis evnen til at trække vejret anerkendes som en ret, så forpligtes samfundet og dets politikere tilsvarende til at sikre de nødvendige professionelle og institutionelle forudsætninger for at borgere, hvis funktioner er nedsat eller truet, får den nødvendige støtte, ikke bare i form af det teknologiske udstyr, men i form af hjælpere og anden form for støtte afstemt efter den enkelte borgers særlige behov.

De anbefalinger, som ledsager undersøgelsen, peger således på et generelt dilemma i det moderne teknologisk-orienterede sundhedsvæsen: På den ene side hensynet til at sikre bestemte funktioner og handleevner og på den anden side hensynet til varetagelse af en lang række andre opgaver inden for sundhedsvæsenet og i samfundet i almindelighed. Denne problemstilling behandles også i en fransk undersøgelse (47). Inden for rammerne af det velfærdsstatsorienterede franske sundhedsvæsen har læger gode betingelser for at anvise invasiv respiratorstøtte til børn med spinal muskelatrofi type 1, men der er stor forskel på bedre stillede familiers og lavindkomstfamiliers muligheder for at sikre betingelser, som er nødvendige for at give børnene, der bruger respirator, en god livskvalitet i livet med respirator. En etisk begrundelse for adgang til brug af HVM indebærer også et etisk begrundet krav om koordinering af specifik faglig indsats i sundhedsvæsenets regi og støtte og rehabiliteringsindsatser i blandt andet kommunalt regi.

6.1.3 HVM fra professionelles og pårørendes standpunkt

En etisk begrundet ret til brug af HVM kræver imidlertid ikke blot en koordineret, tværprofessionel indsats. Brugen af HVM har betydelige konsekvenser for livet i familien med forskellige etiske dilemmaer til følge.

En norsk undersøgelse udvider analysen til netop at omfatte sider af dette spændingsfelt (48). I studiet fokuseres på etiske udfordringer, der er knyttet til former for brug af HMV for børn og voksne, der er afhængige af trakeostomi, fuldtidsstøtte og omsorg for at kunne overleve. Undersøgelsen inkluderer sundhedsprofessionelle i hospitals- og kommunalt regi og familier til brugere (såvel børn som voksne brugere). Patienter er derimod ikke inkluderet. Et liv med respirator i hjemmet kræver vedvarende støtte og omsorg af såvel sundhedsprofessionelle som familie. Der kan her udvikle sig meget spændingsfyldte forhold. Undertiden har familiemedlemmer opnået en næsten ekspertmæssig kompetence, og de kan synes, at de forstår brugerens behov bedst. Kommunens sundhedsprofessionelle opleves undertiden som aktører i et kommunalt bureaukrati, som invaderer hjemmet og påvirker hverdagslivet negativt. Omvendt føler de sundhedsprofessionelle sig ofte intimiderede af familiemedlemmer. Dybwik et al. mener i deres materiale at finde støtte til den principbaserede tilgang til etik, hvor opgaven er at afveje hensyn til henholdsvis autonomi, godgørenhed, ikke skadevolden og retfærdighed (48).

Den norske analyse viser, hvorledes forsøget på at sikre brugeren den nødvendige støtte, for at hun og han kan leve som selvstændige (autonome) personer, udfordrer såvel pårørendes som professionelles autonomi. De professionelle føler deres autonomi truet af de pårørende og omvendt. Autonomi er ikke blot et ideal, der søges sikret for patienter og brugere. Det er et mere alment ideal i hverdagslivet og for den professionelle i hans eller hendes arbejde. Brugen af HMV forudsætter en kollektiv indsats af bruger, pårørende og professionelle. Men den fælles indsats vanskeliggøres af den udbredte fordring om autonomi. De professionelle mener, at det forhold, at brugerne blev behandlet i hjemmet vanskeliggjorde deres professionelle arbejde og således truede deres autonomi som fagpersoner. Familier fremhævede på deres side, at muligheden for at være i hjemmet er en af de vigtigste forudsætninger for både brugernes og de pårørendes autonomi og livskvalitet. Der var også spændinger eller konflikter mellem familierne og hospitalets professionelle. De professionelle var indstillet på at respektere brugernes ønsker, men hævdede samtidig, at brugere og familie er ude af stand til at forstå konsekvenserne af brugernes ønsker og valg. Hermed stiller de professionelle spørgsmål ved, om brugerne (og familierne) reelt er i stand til at udøve autonomi. Dybwik et al. stiller også spørgsmål ved, i hvilket omfang det overhovedet er i et barns interesse, når man beslutter sig til at give det 'et liv forbundet med en respirator'. Man spørger, om denne behandlingspraksis lever op til princippet om godgørenhed. Dybwik et al. synes her at ræsonnere i forlængelse af en klassisk håndtering af princippet om godgørenhed. Det har været formuleret og anvendt i den lange tradition, hvor paternalismen har været et indiskutabelt udgangspunkt for etisk tænkning i medicinen. I denne tradition er det lægelige eller andre ekspertmæssige standarder for 'et godt liv', der lægges til grund for konkrete vurderinger. (48)

Behandling, pleje og omsorg af patienter med HMV må formodes at stille store krav til engagement og entusiasme hos professionelle. Men i den norske undersøgelse ses professionel entusiasme ikke som et ubetinget gode. Det kan være nemt at være entusiastisk på andres vegne, siges det. Man henviser til, at professionelle med megen erfaring med respiratorbehandling var

blevet mere skeptiske og mindre entusiastiske, hvad angår brugen af HMV, efter at have erfaret hvilken høj pris pårørende betaler. Man henviser her både til princippet om godgørenhed og ikke-skadevolden og mener, at de pårørendes omkostninger må inddrages i en samlet vurdering af, om respiratorbehandling er et gode.

I den norske undersøgelse problematiseres respiratorbehandling også med henvisning til princippet om retfærdighed. Retfærdighed er imidlertid et omstridt begreb, som udlægges og anvendes forskelligt ud fra forskellige samfundspolitiske og samfundsøkonomiske vurderinger. Dybwik et al. henviser til nødvendigheden af ansvarlig anvendelse af offentlige ressourcer og nødvendigheden af prioritering inden for sundhedsvæsnets (48). Man fremhæver, at der er en samfundsmæssig interesse i retfærdig fordeling af ressourcer og peger på, at lægers og sygeplejerskers etiske retningslinjer betoner betydningen af retfærdig brug af ressourcer. Man slår videre fast, at det er nødvendigt med prioritering på grund af kløften mellem det, vi faktisk er eller vil være i stand til at gøre, og de økonomiske rammer, som et offentligt finansieret sundhedsvæsen har til sin rådighed. Der vil sikkert være bred accept af disse almene synspunkter, men de kan ikke danne udgangspunkt for en konkret stillingtagen til, om det offentlige sundhedsvæsen skal tilbyde adgang til HMV for bestemte patientgrupper.

6.1.4 Behov for mere etisk forskning på området

Den norske undersøgelse tager da heller ikke endelig stilling til spørgsmålet om adgang til HMV med henvisning til et retfærdighedsprincip, der bygger på overordnede samfundsøkonomiske og ressourcefordelings hensyn. Undersøgelsens konkluderende afsnit afsluttes med en eksplicit normativ anvisning på, hvad man mener, der bør gøres i denne komplekse situation fyldt af dilemmaer: "Sundhedsprofessionelles entusiasme bør i højere grad afvejes i forhold til de store personlige omkostninger respiratorbehandling kan have for familie og pårørende". Det antydes eller forudsættes her, at det er grupper af (entusiastiske) sundhedsprofessionelle, som er ansvarlige for den udvidede brug af hjemmerespiratorer. Dette kan meget vel være korrekt, men synes ikke begrundet ud fra undersøgelsens data. Konklusionen bør sammenholdes med en dansk konklusion, der fremhæver udvalgte brugeres ubetingede positive vurdering af respiratorbehandlingen.

Der findes ingen endegyldige løsninger på de etiske dilemmaer, som opstår i forbindelse med brug af respirator i eget hjem (49). Undersøgelser og analyser, som de to oven for nævnte, bidrager til at tydeliggøre etiske spørgsmål og dilemmaer, og de bidrager til en forståelse af, at forskellige etiske principper tolkes og anvendes forskelligt ud fra forskellige positioner (hospitalsprofessionelle, professionelle i kommunalt regi, brugere, pårørende etc.) ligesom de forskellige principper og hensyn vægtes forskelligt ud fra de forskellige positioner. Undersøgelser og analyser som de nævnte kan bidrage til at skabe forståelse for de forskellige etiske standpunkter og dermed også et grundlag for at overveje måder at håndtere dilemmaerne på i praksis.

Der er behov for yderligere forskning om en række etiske udfordringer og dilemmaer i relation til brugen af HMV. De særlige etiske udfordringer, der er knyttet til ALS, behandles af blandt andet McCluskey et al. Han foreslår, at klinikere og patienter så tidligt som muligt i sygdomsforløbet diskuterer forskellige mulige scenarier for sygdommens udvikling og for afslutning af livet, herunder afbrydelse af brugen af respirator (50). McCluskey et al. lægger ikke op til generelle retningslinjer. Der skal sikres et forhold til hver enkelt patient, hvor individuelle behov vurderes i lyset af kropslige, psykosociale og åndelige komponenter. Windisch et al. Fremhæver, at vi har en betydelig viden om livsafslutningsscenarier for terminale patienter i hospitalssammenhæng, hvorimod vi mangler dækkende viden om livsafslutningsanliggender og beslutningstagen, hvor det drejer sig om alvorligt syge mennesker, der benytter respirator i hjemmet (51).

Der er behov for yderligere diskussion om muligheden for at formulere retningslinjer, der kan være til støtte ved håndteringen af etiske dilemmaer ved brugen af HMV, en problematik der blandt andet diskuteres af Eng et al. (52).

6.2 Diskussion

De etiske dilemmaer i relation til brugen af HMV ansues og søges løst forskelligt fra de forskellige positioner, som aktørerne (patienter, professionelle, politisk og administrativt ansvarlige) indtager.

Fra en samfundspolitisk position, hvor omkostningseffektivitet og ressourceallokering er central, vurderes behandlingens etiske legitimitet i forhold til indsatser på andre områder. Respiratorpatienternes perspektiv underordnes en mere almen problemstilling. I et patientcentreret perspektiv træder omvendt prioriteringsproblematikken i baggrunden. Patientperspektivet er i velfærdsstatens sundhedsvæsen beskyttet af princippet om lige og fri adgang, men i en situation som den aktuelle, hvor rækkevidden af dette princip diskuteres, søger man at mobilisere ny etisk legitimering som fx – i den danske undersøgelse – med ideen om at gøre retten til at trække vejret til en menneskeret. Eller som det er præciseret ovenfor: retten til hjælp til at trække vejret. Patientperspektivet er imidlertid ikke blot udfordret af det samfundspolitiske perspektiv, men også af eventuelle spændinger mellem brugeres og pårørendes vurderinger. Den etiske situation kompliceres yderligere, hvis der (som hævdet i den norske analyse af Dybwik et al.) er modstridende holdninger til behandlingen blandt professionelle. Trods anerkendelse af princippet om patientautonomi har de professionelle stadig en afgørende betydning i klinisk beslutningstagen i vores sundhedsvæsen. En sådan situation stiller store krav til politisk ansvarlige om at gøre de etiske dilemmaer til genstand for offentlig diskussion. En sådan diskussion kan blandt andet styrkes ved at inddrage internationale erfaringer med håndtering af prioriteringss spørgsmål på sundhedsområdet (som fx den autoritet man i England har givet NICE (National Institute of Clinical Excellence) eller det norske prioriteringsinstitut 'Nye Metoder', samt danske erfaringer fra Medicinrådet). Kan vi finde modeller udefra, eller kan vi evt. udvikle en særlig dansk model for offentlig og gennemsigtig mediering af patient-, profes-

sions- og samfundspolitiske perspektiver ved brugen af ny teknologi og behandlingsformer på det sundhedsmæssige område. Diskussion om etik i relation til brug af HMV kan i længden ikke adskilles fra en sådan mere generel samfundsetisk diskussion og stillingtagen.

7 Organisation

Hovedkonklusioner

Formålet med dette kapitel er at klarlægge visitation til og organisering af igangsætning og tilrettelæggelse af HMV-behandling i Danmark, herunder også internationale erfaringer hermed. Desuden at undersøge udfordringer og muligheder i den aktuelle visitation og organisering samt organisatoriske perspektiver på fremadrettet organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV. Analysen kombinerer et systematisk litteraturstudie af internationale studier og evidensbaserede retningslinjer samt en kvalitativ interviewundersøgelse bestående af telefon-interview og fokusgruppeinterview med læger fra de tre respirationscentre samt repræsentanter fra de fem regioner og 10 udvalgte kommuner.

Organisationsanalysen viser, at der ikke foreligger nationale, kliniske retningslinjer for visitation til og organisering af HMV. Internationale visitationskriterier og retningslinjer indgår som del af den lægefaglige viden, og desuden som referenceramme for lokale forløbsbeskrivelser. Organisationsanalysen viser samtidig, at beslutning om henholdsvis henvisning til respirationscentrene og igangsætning af behandling beror på en multifaktoriel vurdering. Dette bevirker, at der kan forekomme variation i forhold til om og hvornår behandling sættes i gang. Organisationsanalysen viser desuden betydelig såvel regional som kommunal variation i præferencer og praksis vedrørende organisering af hjælperordningerne.

Organisationsanalysen giver ikke grundlag for at anbefale en bestemt organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV fremadrettet. Med henblik på at imødekomme eksisterende organisatoriske udfordringer samt skabe ensartede kriterier for visitation og optimerede forløb med høj kvalitet i behandling kan dog påpeges fem områder med potentiale i forhold til fremadrettet visitationspraksis og organisering:

1. Der anskues behov for politisk-administrativ opmærksomhed på, i samarbejde med de lægefaglige miljøer, at opdatere og præcisere den eksisterende beskrivelse af målgruppen for HMV. Desuden kan der være potentialer i at udvikle og skærpe nationale kriterier og retningslinjer for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af behandling.
2. Med henblik på at kvalificere beslutningstagen vedrørende henvisning til respirationscentrene vurderes potentialer i på respirationscentrene at styrke dialogen med henvisende afdelinger forud for visitation af patienter.
3. For at understøtte igangsætning af meningsfulde respiratorforløb samt skabe ensartet lægefaglig praksis understreges vigtigheden af at sikre, at igangsætning af HMV baseres på forudgående systematisk dialog med patienterne, herunder om palliative medicinske alternativer til respiratorbehandling.
4. Der indikeres potentialer i at sikre tidlig inddragelse af patienternes hjemkommuner i etablering af HMV med henblik på at imødekomme udfordringer med sen udskrivning fra intensivafdelingerne og brug af midlertidige aflastningspladser og vikarbureauer. Desuden muliggøres tidlig forventningsafstemning med patienter med henblik på at mindske igangsætning af udfordrende og omkostningstunge forløb.
5. Endelig vurderes behov for og potentialer i lokalt og på nationalt, politisk-administrativt niveau at nedbringe udskiftning i hjælperhold samt skabe bedre rammer for og regulering af hjælperordninger med henblik på at understøtte optimerede forløb for patienter i HMV.

7.1 Indledning

Formålet med den organisatoriske analyse er at klarlægge visitation til og organisering af HMV i Danmark. Desuden er det analysens formål at undersøge udfordringer og muligheder i den aktuelle visitation og organisering samt organisatoriske perspektiver på fremadrettet visitation til og organisering af HMV. Dette danner udgangspunkt for følgende analysespørgsmål:

1. Hvad er de internationale erfaringer med visitation til og organisering af HMV?
2. Hvordan er visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV organiseret i dansk sammenhæng?
3. Hvilke udfordringer og muligheder kan identificeres i organiseringen af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV i en dansk sammenhæng?
4. Hvilke perspektiver kan der peges på i forhold til fremtidig organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV?

Analysespørgsmålene er formuleret med afsæt i de generiske domænespørgsmål fra domænerne 'Organisational aspects' 'Health Problem and Current Use of the Technology' og 'Description and technical characteristics of technology' i EUnetHTA's HTA Core Model. Analysespørgsmålenes relation til domænespørgsmålene fremgår af tabel 7.1.

Tabel 7.1. Udvalgte domænespørgsmål (assessment elements) fra EUnetHTA's HTA Core Model

ID	Område	Analysespørgsmål
1. Hvad er de internationale erfaringer med visitation til og organisering af HMV? (herunder specifikation i internationale kliniske retningslinjer)		
A0024 A0025	- Current Management of the Condition	- How is HMV currently diagnosed according to published guidelines and in practice? - How is the disease or health condition currently managed according to published guidelines and in practice?
2. Hvordan er visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV organiseret i dansk sammenhæng?		
A0024 B0010 B0012 B0013 G0001 G0003 G0004 G0009 G0010	- Current Management of the Condition - Investments and tools required to use the technology - Training and information needed to use the technology - Health delivery process Management	- How is HMV currently diagnosed according to published guidelines and in practice? - What kind of data/records and/or registry is needed to monitor the use of HMV? - What kind of requirements in terms of qualification and quality assurance processes are needed for the use or maintenance of HMV? What kind of skills and training characteristics and information are needed for the personnel using HMV? - What kinds of work processes are associated with HMV? - What kinds of processes ensure proper education and training of staff? - What kind of co-operation and communication of activities are present? - Who decides which people are eligible for HMV and on what basis? - What kind of patient flow is associated with HMV?
3. Hvilke udfordringer og muligheder kan identificeres i organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV i en dansk sammenhæng?		
G0008	Management	- What kind of organisational and management challenges and opportunities are attached to visitation to and organisation of HMV?
4. Hvilke perspektiver kan der peges på i forhold til fremtidig organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV?		

Nedenfor præsenteres kapitlets metodiske tilgang. Herefter følger tre delanalyser, der modsvarer kapitlets analysespørgsmål. I analysens første del præsenteres de internationale erfaringer med visitation til og organisering af HMV. I analysens anden del kortlægges organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV i en dansk sammenhæng, mens analysens tredje del præsenterer udfordringer og muligheder samt organisatoriske perspektiver på fremadrettet organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV. Afslutningsvis diskuteres den samlede organisationsanalyses resultater og metode.

7.2 Metode

Organisationsanalysen kombinerer et systematisk litteraturstudie og en kvalitativ interviewundersøgelse. De to datakilder supplerer hinanden i forhold til dels at sikre mere valide analyser, dels belyser de forskellige aspekter af organisering af HMV. Hvor litteraturstudiet giver et overblik over nationale og internationale forskningserfaringer, herunder over foreliggende internationale kliniske retningslinjer, skaber interviewundersøgelsen viden om, hvordan visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV organiseres i en dansk kontekst, samt organiserings oplevede udfordringer og muligheder (53-55). Desuden bidrager litteraturstudiet til at identificere eventuelle væsentlige organisatoriske forhold i den videre analyse.

7.2.1 Systematisk litteraturstudie

Studierne til det systematiske litteraturstudie blev identificeret gennem en systematisk litteratursøgning samt ved hjemmesidesøgning og søgning i andre relevante informationskilder. Der medtages både kvantitative og kvalitative studier. Søgning, udvælgelse og gennemgang af studier er beskrevet i afsnit 2.6 og 2.7 samt i bilag 1.

7.2.2 Interviewundersøgelsen

Interviewundersøgelsen tilrettelægges som et komparativt case-design, der inkluderer samtlige tre respirationscentre, fem regioner og 10 kommuner (to i hver region, uddybes nedenfor). Designet muliggør at identificere forskelle og ligheder på tværs af centre, regioner og kommuner. Komparationen har et empirisk afsæt, hvor der ikke på forhånd ligger teoretisk begrundede forventninger til analysen, ligesom graden af forskelle og ligheder mellem casene forbliver et empirisk spørgsmål.

Vi har valgt at inddrage to kommuner i hver region. Vi har udvalgt kommunerne ud fra det kriterium, at de repræsenterer 'best cases' i den forstand, at de har en vis volumen af patienter med HVM og dermed en vis erfaring med håndtering af patientgruppen og organisering af behandlingsformen. Dermed undgås risikoen for at komme til at fokusere på kommuner, som kun har sporadisk eller ingen aktuel erfaring med patienter med HVM. Det konkrete valg af kommuner er baseret på vurderinger fra kontaktpersoner på respirationscentrene og/eller i de fem regioner med viden om fordelingen af patienter i kommuner. På den baggrund faldt valget på følgende 10 kommuner: Aalborg og Hjørring (Region Nordjylland), Aarhus og Herning (Region Midtjylland), Vejle og Odense (Region Syddanmark), Slagelse og Næstved (Region Sjælland) samt Frederiksberg og Egedal (Region Hovedstaden).

Ved at vælge 'best cases' skal man være opmærksom på, at billedet af organiseringen kan være anderledes i andre kommuner end de udvalgte, særligt i kommuner, hvor erfaringen med patientgruppen og dermed organiseringen af behandlingen er væsentlig mindre. Dette har følgende konsekvenser for generaliserbarheden af organisationsanalysens resultater. Der vendes tilbage til dette i afsnit 7.8.

Udvælgelse af interviewpersoner og gennemførelse af interview

Der anvendes to forskellige typer af interview: Telefoninterviews og fokusgruppeinterviews. Hvor telefoninterviewene anvendes til indhentning af faktuelle informationer om organiseringen af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HVM, bidrager fokusgruppeinterviewene med indsigt i, hvordan organiseringen opleves og vurderes. Fordelen ved at anvende fokusgruppeinterviews i forhold til organisationsanalysens problemstillinger er desuden muligheden for at opnå indblik i, hvordan de involverede aktører diskuterer og oplever hinandens roller i forbindelse med HVM.

Telefoninterviewene omfatter interview med læger fra hvert af de tre respirationscentre (n = 3), repræsentanter fra hver region (n = 5) og repræsentanter fra hver af de ti udvalgte kommuner (n = 12). Fokusgruppeinterview blev gennemført for hver region med repræsentanter fra respirationscentret, region og kommuner. Så vidt muligt gennemførtes fokusgruppeinterviewene med samme informanter som deltog i telefoninterviewene. Interviewpersonerne er valgt, da de repræsenterer forskellige perspektiver på organisering af HVM og dermed samlet set bidrager til at give et mere helhedsorienteret perspektiv på organisering af HVM og dermed på analysespørgsmålene. Der blev ikke foretaget interview med faglærte og ufaglærte hjælpere til respiratorbrugerne, og deres perspektiver indgår således ikke i den organisatoriske analyse.

Rekruttering af interviewpersoner foregik på den måde, at de tre respirationscentre blev kontaktet med henblik på interview med en af deres overlæger. Hver af de fem regioners relevante stabsfunktion (herefter refereret til som regionen) blev kontaktet med henblik på at udpege en medarbejder til interview med viden om organisering af HVM. Endelig blev hver af de deltagende kommuner kontaktet med henblik på også her at udvælge en til to interviewpersoner med indsigt i HVM. Tabel 7.2 nedenfor giver en oversigt over informanter og afholdte interviews. I bilag 2 præsenteres en mere nuanceret oversigt over interviewundersøgelsens adspurgte og deltagende informanter.

Tabel 7.2. Oversigt over telefoninterview

Interviewpersoner	Antal
Læger fra respirationscentre	3
Repræsentanter fra kommuner	11 (10 interviews)
Repræsentanter fra regioner	6 (5 interviews)

Tabel 7.3. Oversigt over fokusgruppeinterview

	Interviewpersoner	Antal
Region Hovedstaden	Repræsentanter fra respirationscentret (2) Repræsentanter fra kommuner (2) Repræsentanter fra regionen (1)	5
Region Sjælland	Repræsentanter fra respirationscentret (1) Repræsentanter fra kommuner (3) Repræsentanter fra regionen (1)	5
Region Syddanmark	Repræsentanter fra respirationscentret (1) Repræsentanter fra kommuner (2) Repræsentanter fra regionen (0, grundet sygdom)	3
Region Midtjylland	Repræsentanter fra respirationscentret (2) Repræsentanter fra kommuner (2) Repræsentanter fra regionen (1)	5
Region Nordjylland	Repræsentanter fra respirationscentret (1) Repræsentanter fra kommuner (2) Repræsentanter fra regionen (1)	4

Der blev til både telefoninterviews og fokusgruppeinterviews udarbejdet en semistruktureret interviewguide (56). Interviewguiderne er blevet udviklet i samarbejde med projektgruppen. De anvendte interviewguides fremgår af bilag 3-6. Telefoninterviewene varede ca. 30 minutter, mens fokusgruppeinterviewene varede ca. to timer. Fokusgruppeinterviewene foregik på respirationscentre eller i lokaler stillet til rådighed af region eller kommune. Alle interview blev optaget på diktafon og efterfølgende transskriberet.

Som supplement til interviewene inddrages foreliggende og relevante dokumenter vedrørende visitation og organisering af HVM fra de involverede respirationscentre, regionerne og kommuner. Desuden inddrages dokumenter vedrørende lovgivning for og regulering af HVM samt eksisterende analyser af HVM.

7.3 Internationale erfaringer med visitation til og organisering af HVM

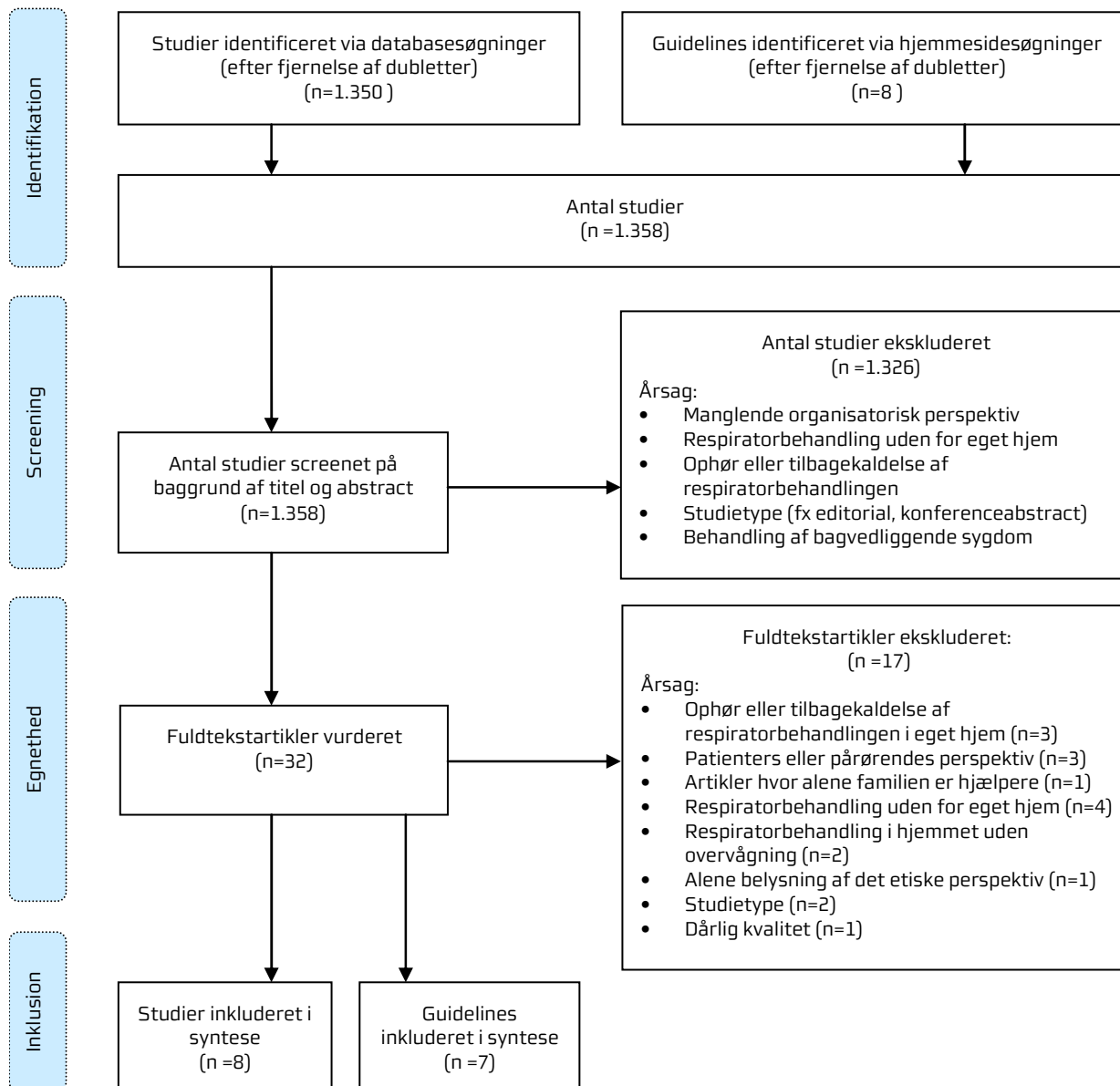
I dette afsnit præsenteres de internationale erfaringer med visitation til og organisering af HVM (analyse spørgsmål 1) baseret på det udarbejdede systematiske litteraturstudie. Afsnittet indledes med en præsentation af resultatet af den samlede systematiske litteratursøgning. Herefter følger først præsentation af de foreliggende internationale evidensbaserede retningslinjer for HVM, dernæst af de internationale erfaringer med og anbefalinger til organisering af HVM.

7.3.1 Resultater af det systematiske litteraturstudie

Den systematiske litteratursøgning i databaser resulterede i 1350 studier efter fjernelse af doubletter. Den supplerende søgning efter evidensbaserede, kliniske retningslinjer via hjemmesidesøgning resulterede i otte hits efter fjernelse af doubletter. I alt blev således 1358 studier screenet på baggrund af titel og abstract. Af disse blev 32 studier udvalgt til fuldtekstlæsning. Fuldtekstlæsningen resulterede i, at otte studier og syv kliniske retningslinjer blev inkluderet. Udvælgelsesprocessen på såvel titel-/abstractniveau som fuldtekstniveau blev varetaget af to projektgruppemedlemmer uafhængigt af hinanden. Uoverensstemmelser blev drøftet og løst

ved konsensus. Udvælgelsesprocessen samt de in- og eksklusionskriterier, der dannede afsæt for udvælgelsen, er illustreret i flowchartet, figur 7.1.

Figur 7.1. Flowchart over in- og eksklusion af studier



7.3.2 Internationale visitationskriterier for HMV

Nedenfor præsenteres udvalgte internationale retningslinjer, som indeholder bud på kriterier for igangsætning af HMV. Retningslinjerne indeholder dels objektive kriterier for, hvilke grader af lungefunktionsnedsættelse, som berettiger igangsætning af HMV, og dels kulturelt forankrede prioriteringer af, hvilke behandlingstilbud en mulig HMV-patient får præsenteret.

Karakteristik af de inkluderede retningslinjer

De syv inkluderede, evidensbaserede retningslinjer er publiceret i perioden 2009 til 2016. Retningslinjerne er fra England (17,57), Canada (16), USA (58,59) og Tyskland (60). Derudover er en retningslinje udarbejdet af en europæisk arbejdsgruppe (18). To af retningslinjerne omhandler HMV af børn, tre omhandler retningslinjer til HMV af patienter med ALS/motorneuronsygdom, og to omhandler HMV til alle patienter med kronisk respirationsinsufficiens. I bilag 9 ses en oversigt over kliniske karakteristika for de inkluderede retningslinjer. I gennemgangen af de kliniske retningslinjer fokuseres der på undersøgelser og visitationskriterier for igangsætning af HMV for udvalgte patientgrupper. Anbefalinger omkring rensning af luftveje, fx i form af forskellige teknikker til at løsne slim i lungerne, er ikke medtaget i nedenstående beskrivelser, da det ligger uden for rammerne af denne MTV.

Kvalitet af retningslinjer

I tabel 7.4 ses de opnåede AGREE-scores for de syv retningslinjer. Den engelske retningslinje for undersøgelse og behandling af motorneuronsygdom fra 2016 har opnået den højeste overordnede kvalitetsscore. Derudover blev en amerikansk retningslinje vedrørende håndtering af ALS-patienter, en canadisk retningslinje om HMV til voksne, samt en engelsk retningslinje vedrørende respiratorisk håndtering af børn med neuromuskulære lidelser vurderet til at være af høj kvalitet (16,17,58). Den tyske og den europæiske retningslinje opnåede de laveste overordnede AGREE-scores (18,60). De lave scores skyldtes primært mangelfulde beskrivelser af de anvendte metoder for indsamling og syntetisering af evidens samt mangelfulde beskrivelser af de metoder, som blev anvendt til at udarbejde og opdatere anbefalingerne.

Tabel 7.4. Kvalitet af inkluderede kliniske retningslinjer

Domæne (maks. score)	American Thoracic Society, 2016 (59)	NICE, 2016 (57)	Canadian Thoracic Society, 2011 (16)	British Thoracic Society, 2012 (17)	EFNS task force, 2012 (18)	German Society for Pneumology (DGP), 2010 (60)	American Academy of Neurology, 2009 (58)
Scope and Purpose (21)	20	21	21	20	20	15	21
Stakeholder Involvement (21)	17	19	20	19	16	13	19
Rigour of Development (56)	45	56	50	49	35	35	52
Clarity of Presentation (21)	18	21	21	20	19	16	18
Applicability (28)	20	20	22	17	19	21	13
Editorial Independence (14)	11	13	12	13	13	11	12
Overall Quality (7)	5	7	6	6	4	4	6

Kliniske retningslinjer for HMV til patienter med neuromuskulære lidelser

I dette afsnit præsenteres internationale evidensbaserede retningslinjer for HMV til patienter med neuromuskulære lidelser. Neuromuskulære lidelser omfatter, som beskrevet tidligere, en række forskellige sygdomme, som kan ramme muskler, nerver i ben og arme, forbindelsen mellem nerver og muskler eller rygmargens nerveceller. En oversigt over de identificerede retningslinjer for respiratoriske undersøgelser, visitationskriterier og anbefalinger for patientgruppen fremgår af bilag 10. Som det fremgår af tabellen omhandler fem af de syv inkluderede kliniske retningslinjer anbefalinger for HMV til patienter med neuromuskulære lidelser (16,18,57,58,60). Den tyske retningslinje indeholder anbefalinger til patienter med neuromuskulære lidelser generelt, mens de resterende fire retningslinjer indeholder mere diagnosespecifikke anbefalinger. Et fællestræk for de fem retningslinjer er, at NIV-behandling anbefales som førstelinjebehandling frem for invasiv behandling til patienter med neuromuskulære lidelser og kronisk respirationssvigt. Der er ligeledes enighed mellem retningslinjerne om, at langvarig invasiv HMV kun bør igangsættes i tilfælde, hvor NIV-behandling ikke er mulig eller ikke er effektiv, samt endelig at invasiv HMV kun bør igangsættes efter eksplicit ønske fra patient og pårørende. I den tyske retningslinje beskrives følgende indikationer for invasiv HMV til patienter med neuromuskulære lidelser og kronisk respirationssvigt generelt (i overensstemmelse med den grundigt informerede patients ønsker og samtykke):

- Når det ikke er muligt at tilpasse en maske til patienten
- Ved intolerance af NIV
- Ved ineffektivitet af NIV

- Ved alvorlige bulbære symptomer med tilbagevendende fejlsynkning
- Ineffektiv non-invasiv håndtering af slim i lungerne
- Når det ikke er muligt at skifte til NIV efter invasiv ventilering

I nedenstående afsnit beskrives diagnosespecifikke indikationer for HMV til patienter med henholdsvis ALS, Duchennes muskeldystrofi og andre muskeldystrofier.

Kliniske retningslinjer for HMV af patienter med ALS

Fire af de inkluderede retningslinjer indeholder anbefalinger for HMV til patienter med ALS (16,18,57,58). I alle fire retningslinjer fremhæves det, at patienter med ALS bør tilbydes regelmæssig monitorering af symptomer på respirationsinsufficiens. De specifikke anbefalinger for, hvad undersøgelserne skal indeholde, er beskrevet i den første kolonne i tabel 2, bilag 10. Indikationer for igangsætning af HMV til patienter med ALS er beskrevet i den canadiske og i den engelske kliniske retningslinje. Der er høj grad af overensstemmelse imellem de to retningslinjer i forhold til hvilke kriterier, der skal være opfyldte for at HMV med NIV bør tilbydes. I begge retningslinjer anbefales det, at NIV bør tilbydes til ALS-patienter med en eller flere af følgende symptomer:

- Forceret vital kapacitet (FVC) (lungefunktion) under 50 % af forventet
- Åndenød i liggende stilling (ortopnø)
- Styrken af respirationsmusklerne vurderet med Sniff Nasal Inspiratory Pressure (SNIP/SNP) og/eller maksimalt inspiratorisk tryk (MIP/PI_{max}) under 40 cmH₂O

Derudover nævnes søvnrelateret vejrtrækningsbesvær og forhøjet kuldioxidindhold i blodet (hyperkapni) som specifikke kriterier i den canadiske retningslinje (16), mens den engelske retningslinje anbefaler, at patienter med ethvert tegn på respirationsinsufficiens kombineret med FVC og VC (vital kapacitet) under 80 % af forventet bør tilbydes NIV (57).

Der er enighed på tværs af retningslinjerne om, at NIV bør være førstelinjebehandling frem for invasiv respiratorbehandling til patienter med ALS og respirationsinsufficiens. I den canadiske retningslinje fremgår det, at NIV er at foretrække, selv når respiratorbehandling er påkrævet 24 timer i døgn (16). Vigtigheden af dialog med patient og pårørende tidligt i forløbet omkring behandlingsmuligheder og den terminale fase fremhæves i flere af retningslinjerne (18,58). Den tidlige drøftelse med patient og pårørende kan bidrage til, at akut invasiv respiratorbehandling kan undgås, idet der kan træffes beslutning om igangsætning af NIV-behandling eller palliativ medicinsk behandling (18,58). I den engelske retningslinje anbefales det, at patienter med ALS og respirationsinsufficiens tilbydes et prøveforløb med NIV, såfremt patientens symptomer og resultaterne af de respiratoriske funktionstest indikerer, at personen vil få gavn af behandlingen. Hos patienter med alvorlige bulbære symptomer eller alvorlige kognitive problemer, der kan være

relateret til respirationsinsufficiens, anbefaler den engelske retningslinje kun et prøveforløb med NIV, såfremt patienten vil have gavn af forbedring i søvnrelaterede symptomer eller korrektion af hypoventilation (57).

Der er ikke angivet specifikke indikationer for igangsætning af invasiv HVM, men det fremgår i den canadiske retningslinje, at langvarig invasiv HVM kan tilbydes efter akut respirationssvigt, som kræver invasiv ventilering, såfremt patienten og pårørende forstår konsekvenserne, og passende støtte er tilgængelig (16).

Kliniske retningslinjer for HVM af patienter med Duchennes muskeldystrofi og andre muskeldystrofier og myopatis

Der er kun inkluderet en retningslinje, som omhandler HVM til patienter med Duchennes muskeldystrofi samt andre muskeldystrofier og myopatis (16). En oversigt over undersøgelser, indikatorer for HVM samt anbefalinger ses i tabel 3 og 4, bilag 10. For patienter med Duchennes muskeldystrofi anbefales det, at lungefunktionen undersøges mindst en gang årligt, og at patienterne omhyggeligt udspørges om symptomer på natlig utilstrækkelig vejrtrækning (hypoventilation). Kontrollerne bør foretages med klinisk indiceret hyppighed i takt med sygdomsprogression, og patienterne bør uddannes til at rapportere symptomer på utilstrækkelig vejrtrækning, herunder forstyrret søvn, overdreven træthed i dagtimerne, morgenhovedpine og vægttab. For begge sygdomsgrupper (Duchennes muskeldystrofi og andre dystrofier og myopatis) anbefales det, at der udføres en række lungefunktions- og respirationsmuskeltests samt analyser af blodgasværdier.

Det anbefales at tilbyde natlig NIV til patienter med Duchennes muskeldystrofi, som har forhøjet kuldioxidindhold i blodet i dagtimerne (arteriel $pCO_2 > 45$ mmHg i dagtimerne), eller hvor der kan dokumenteres natlig forhøjet kuldioxidindhold i blodet og tilstedeværelse af symptomer forenelige med hypoventilation (16). NIV under søvn bør tilbydes patienter, som demonstrerer en større grad af natlig hypoxæmi, også selv om det er asymptomatisk. Beslutning om at overgå fra natlig NIV til også at anvende NIV i dagtiden bør foretages individuelt ved omhyggeligt at evaluere patientfaktorer (symptomer, bulbær involvering, patientpræferencer etc.) og tilgængelige ressourcer. Hos patienter, som har behov for ventilation i dagtimerne, bør man kraftigt overveje mundstykkeventilation som et alternativ til trakeostomi (16).

Hos patienter med andre muskeldystrofier og myopatis anbefales det, at NIV tilbydes, når der er forhøjet kuldioxidindhold i blodet i dagtimerne eller symptomatisk natlig hypoventilation (16).

Kliniske retningslinjer for HVM til patienter med kyfaskoliose

I dette afsnit beskrives internationale retningslinjer for HVM til patienter med kyfaskoliose. Kyfaskoliose er som beskrevet i indledningen en unormal krumning af rygsøjlen, både i det frontale og i det sagittale plan. Kyfaskoliose kan også forekomme sekundært

til andre lidelser, herunder neuromuskulære lidelser, sygdomme i rygsøjlen og bindevævsabnormiteter (16). Der er inkluderet to kliniske retningslinjer, som omhandler anbefalinger for HMV til patienter med kyfaskoliose. En oversigt over anbefalingerne ses i tabel 5, bilag 10. I begge retningslinjer anbefales det, at patienter med kyfaskoliose får foretaget periodisk spirometri, og at der, såfremt FVC (VC) er <50 %, foretages løbende undersøgelser for tegn på respirationsinsufficiens grundet forhøjet kuldioxidindhold i blodet (16,60).

Der er ligeledes enighed om, at NIV bør være det primære behandlingstilbud til patienter med kyfaskoliose frem for invasiv HMV. De fleste patienter, som har kronisk respirationssvigt med forhøjet kuldioxidindhold i blodet, bør tilbydes langvarig (natlig) NIV (16,60). I den tyske retningslinje anbefales følgende grænseværdier for igangsætning af NIV:

- Kronisk hyperkapni i dagtimerne med $\text{PaCO}_2 \geq 45$ mmHg
- Natlig hyperkapni med $\text{PaCO}_2 \geq 50$ mmHg
- Dagtidnormokapni med en stigning i PTcCO_2 på ≥ 10 mmHg om natten

Patienter med for lavt arterielt iltindhold, som ikke samtidig har forhøjet kuldioxidindhold i blodet kan, ifølge den canadiske retningslinje, med forsigtighed behandles med iltterapi alene. Denne anbefaling skyldes manglende evidens for effekten af NIV på baggrund af nedsat lungefunktion alene. Opfølgningsstudier har påvist, at patienter med kyfaskoliose med en VC på <50 % af forventet værdi kan overleve i mange år, før der opstår respiratorisk svigt. Såfremt iltbehandling alene kan lindre patientens respiratoriske symptomer uden udvikling af CO_2 -ophobning, kan iltterapi derfor overvejes under nøje monitorering af kuldioxidindholdet i blodet. Såfremt der over tid opstår forhøjet kuldioxidindhold i blodet vil ventilationsstøtte i form af NIV være påkrævet (16).

Kliniske retningslinjer for HMV til patienter med rygmarvsskade

Der er kun inkluderet en retningslinje, som omhandler anbefalinger for HMV til patienter med rygmarvsskade (16). En oversigt over anbefalingerne i retningslinjen ses i tabel 6, bilag 10. Eftersom invasiv respiratorbehandling ofte er påkrævet i den tidlige behandling af patienter med rygmarvsskade, er der i anbefalingerne til patientgruppen særligt fokus på den tidlige håndtering, fravænnning fra respiratorbehandling samt optimering af muligheder for at overgå til NIV fra invasiv ventilering. I undersøgelsen af patienter med rygmarvsskade fremhæves det, at der bør foretages en individuel vurdering af behovet for langsigtet ventilering i den akutte fase eller ved opfølgning. Retningslinjen indeholder ikke specifikke anbefalinger til visitationskriterier for langvarig brug af HMV til patienter, som er afhængige af respiratorbehandling på sygehus umiddelbart efter, at de har pådraget sig en rygmarvsskade. Til denne patientgruppe fremhæves i stedet vigtigheden af at forsøge at fravænne patienten fra respiratorbehandlingen eller (såfremt dette ikke er

muligt) at få patienten til at overgå til NIV frem for at vedblive med den invasive respiratorbehandling.

Hos patienter, som succesfuldt fravænnenes respirator under indlæggelse eller som er uafhængige af respiratorbehandling efter rygmarvsskade, anbefales det, at der på lang sigt foretages regelmæssig (årlig) monitorering af den respiratoriske funktion. Det skyldes, at de fleste rygmarvslæsioner forårsager kompromitteret lungefunktion, og at en yderligere reduktion i lungefunktion kan forekomme over tid. Monitoreringen har til formål at sikre, at enhver yderligere reduktion af lungefunktion, blodgasudveksling, gradvis udvikling af søvnrelateret vejrtrækningsbesvær eller respirationsinsufficiens identificeres. Fysiologiske kriterier, som indikerer potentielt behov for langvarig respiratorbehandling omfatter: FVC <10 ml/kg eller under 25 % af forventet, P_{Imax} < 50 cmH₂O, PaCO₂ i dagtiden > 50 mmHg og natlig desaturation (16).

Kliniske retningslinjer for HMV til børn

Tre af de inkluderede retningslinjer indeholder anbefalinger for HMV til børn (17,59,60). En oversigt over anbefalingerne fremgår af tabel 7, bilag 10. Den amerikanske retningslinje fra 2016 beskæftiger sig udelukkende med anbefalinger til organisering af HMV og indeholder således ikke anbefalinger for undersøgelser eller visitationskriterier (59). Den engelske retningslinje indeholder en række anbefalinger for undersøgelser af børn med neuromuskulære lidelser. Overordnet anbefales det, at der foretages en klinisk vurdering af den respiratoriske funktion ved hver lægekonsultation for børn med neuromuskulære lidelser. Desuden anbefales, at der for børn med en vitalkapacitet på <60 % af forventet og for børn, hvor der observeres progressiv muskelsvaghed eller som aldrig opnår gangfunktion, foretages undersøgelser for søvnrelateret vejrtrækningsbesvær minimum en gang om året. Ligeledes anbefales det, at der foretages søvnvurdering minimum en gang om året for alle spædbørn med neuromuskulære lidelser, børn med symptomer på obstruktiv søvnapnø eller hypoventilation, børn med klinisk tegn på diafragmasvaghed samt børn med forskellige rygsyndromer. I den tyske retningslinje nævnes det, at anbefalinger for visitationskriterier for HMV til børn principielt set ikke adskiller sig fra anbefalingerne til voksne, hvilket bakkes op af den engelske retningslinje, som anbefaler, at børn med neuromuskulære lidelser, som resulterer i symptomatisk natlig hypoventilation eller hyperkapni i dagtimerne, bør støttes med NIV. I alle tre retningslinjer fremhæves det, at der er særlige sikkerhedsmæssige forhold, som gør sig gældende ved respiratorbehandling til børn. Det fremhæves, at børn har hurtigere og mere overfladisk og uregelmæssig vejrtrækning end voksne, hvilket der skal tages højde for ved valg og indstilling af respiratoren. Ligeledes lægges der vægt på vigtigheden af, at et barn, som er afhængig af HMV, har konstant overvågning i hjemmet, da barnet i en nødsituation ofte ikke vil kunne fjerne masken selv. Endelig anbefales det, at man skal være særligt opmærksom på, at maskens pasform passer til barnet, grundet risiko for misdannelser i ansigtet og skader på huden.

7.3.3 Opsummering af internationale retningslinjer for HMV

Som det fremgår af ovenstående er der en høj grad af overensstemmelse mellem retningslinjerne i forhold til visitationskriterier for igangsætning af HMV. Der ses blandt andet et stort overlap i anbefalingerne omkring valg af lungefunktionsundersøgelser og cut-off-værdier for igangsætning af HMV på tværs af lande. Desuden er der bred enighed om, at NIV bør være førstelinjebehandling frem for invasiv behandling på tværs af diagnoser. Inden for diagnostikken er det dog værd at bemærke, at man i de angelsaksiske lande i højere grad har fokus på blodets iltmætning, hvorimod man i blandt andet skandinaviske, tysk og hollandsk tradition i højere grad også inddrager blodets indhold af CO₂, især under søvn, som mål for hvor nødlidende patientens vejtrækning er. Det kan i nogle tilfælde medføre forskelligt beslutningsgrundlag for tilbud om HMV, og det betyder også, at retningslinjer ikke altid automatisk kan overføres fra et land til et andet. Med hensyn til behandling indikeres en tendens til særligt i de angelsaksiske lande at vælge behandling med NIV frem for også at tilbyde invasiv behandling.

7.4 Internationale erfaringer med organisering af HMV

Nedenfor præsenteres de internationale erfaringer med og anbefalinger til organisering af HMV. Der fokuseres i præsentationen på de organisatoriske erfaringer og anbefalinger, som vurderes at være mest relevante i en dansk sammenhæng. Dette ud fra den betragtning, at sundheds- og socialvæsenet på tværs af nationale kontekster i større og mindre grad adskiller sig både hvad angår forvaltningsmæssige rammer, styring og organisering. Det gælder også for organiseringen af HMV. Den geografiske kontekst for studierne har således i nogen grad betydning for overførbareheden og generaliseringsmuligheden af de internationale erfaringer og anbefalinger. Overførbarehed diskuteres yderligere i afsnit 7.8.

Karakteristik af den inkluderede litteratur

De inkluderede otte studier præsenteres i bilag 7, hvad angår problemstilling, genstandsfelt, metode, resultater og kvalitet. Studierne er publiceret i perioden 2007 til 2016, og er fra Italien (61,62), Norge (63), Sverige (64), USA (65), England (66) og Canada (67). Litteraturen karakteriseres ved en overvægt af kvalitative studier og surveyundersøgelser. Desuden indgår en enkelt RCT, en review-artikel og en task force-rapport. Endelig inddrages organisatoriske anbefalinger fra de inkluderede evidensbaserede, kliniske retningslinjer (disse fremgår af bilag 8). Studiernes undersøgelsesdesign indebærer, at litteraturpræsentationen i høj grad begrænser sig til overordnede og deskriptive betragtninger, erfaringer og anbefalinger vedrørende organisering af HMV. Således giver studierne indsigt i, hvordan man kan tilrettelægge visitation til og organisering af HMV, men kun i begrænset omfang vurderes konsekvenserne og effekten ved forskellige organiseringsmåder. I de tilfælde, hvor konsekvensbetragtninger eller effekt af organiseringsmåder udfoldes, medtages de i litteraturpræsentationen. Endvidere gælder for de inkluderede studier, at de hver især præsenterer specifikke nedslagspunkter i eller elementer af

HMV og ikke forholder sig til organiseringen af det samlede forløb, som kapitlet søger at belyse.

De inkluderede studier karakteriseres overordnet ved moderat til god metodisk kvalitet. De mindre variationer i studiernes metodiske kvalitet skyldes blandt andet varierende omfang af metodebeskrivelse, herunder af rekruttering af informanter. Nærmere beskrivelse af studiernes kvalitet fremgår af tabellen i bilag 7. Resultatet af CASP-vurderingen af de kvalitative studier (63,64,66) fremgår desuden af tabel 7.5 nedenfor. De kvalitative studier karakteriseres overvejende ved klart formulerede formål, dækkende metodebeskrivelser samt transparente analyser. De tre studier mangler dog alle i varierende grad refleksioner over forholdet mellem forskeren og studiets deltagere.

Tabel 7.5. Resultat af kvalitetsvurderingen af kvalitative studier

	Dybvik, Nielsen & Brinchmann (2011) (63)	Israaelsson-Skogsberg & Lindahl (2016) (64)	Maddox & Pontin (2013) (66)
1. Har studiet en klar fremstilling af sit formål?	●	●	●
2. Er det velvalgt at undersøge problemstillingen med en kvalitativ metode?	●	●	●
3. Er studiedesignet hensigtsmæssig i forhold til formålet med studiet?	●	●	●
4. Er udvælgelsesstrategien hensigtsmæssig i forhold til formålet med studiet?	●	●	●
5. Blev data indsamlet, så de omhandlede forskningsfeltet?	●	●	●
6. Er forholdet mellem forfatter/forsker og deltager overvejet?	●	●	●
7. Er etiske spørgsmål blevet overvejet?	●	●	●
8. Er dataanalysen tilstrækkelig stringent?	●	●	●
9. Er der en klar fremstilling af resultatet?	●	●	●
10. Hvor værdifuld er studiet?	●	●	●
Samlet vurdering af kvaliteten	●	●	●

● = Ingen eller få metodiske begrænsninger

● = Moderate metodiske begrænsninger

● = Alvorlige metodiske begrænsninger

Præsentationen af de internationale erfaringer med organisering af HVMV struktureres efter følgende temaer: 'Organisatorisk variation og behov for retningslinjer', 'Overgangen fra hospital til respiratorisk behandling i eget hjem', 'Anvendelsen af telemedicin i monitorering af patienter', 'Respiratoriske hjælperes kompetencer og oplæring', 'Udfordringer i hjemmet og hjælpernes psykiske arbejdsmiljø'.

Organisatorisk variation og behov for retningslinjer

Litteraturstudiet viser, at HVMV på flere organisatoriske parametre kendetegnes ved betydelig både national og lokal variation. Dette både i forhold til anvendte kriterier for i-gangsætning, standarder for monitorering af behandling, tilrettelæggelse af hjælperuddannelsen og håndtering af kompetencevurdering af respiratoriske hjælpere (65,67). Årsagerne til variationen er ikke systematisk afdækket, men vurderes i studierne relateret til forskelle i tilgængeligheden af undersøgelsesmetoder, kliniske præferencer samt begrænsede evidensbaserede standarder og retningslinjer for respiratorisk behandling (67).

Den såvel nationale som lokale organisatoriske variation anføres i et studie (65) at give anledning til frustrationer blandt såvel sundhedsprofessionelle som patienter og pårørende. Desuden anføres variationen at have potentielle negative konsekvenser i forhold til at

sikre god ressourceudnyttelse og kvalitet i behandlingen (67). Der påpeges på den baggrund dels en hensigtsmæssighed i at tydeliggøre kriterier for visitation til HMV samt et behov for nationalt at øge opmærksomheden på udviklingen af kliniske retningslinjer og klare standarder for respiratorisk behandling (65,67).

Overgangen fra hospital til HMV

Overgangen fra hospital til hjemmet i forbindelse med igangsætning af HMV kan være kompliceret. Flere studier understreger derfor væsentligheden i at understøtte omhyggelig og tidlig planlægning af overgang til eget hjem. Dette for at sikre en hensigtsmæssig igangsætning af behandling og et bæredygtigt behandlingsmiljø i hjemmet (16,60,65). Litteraturstudiet viser flere organisatoriske opmærksomhedspunkter og anbefalinger i den forbindelse.

Indledningsvis understreges væsentligheden i, at udskrivning til HMV først sker, når dels patienten (og dennes underliggende sygdom(me)) vurderes stabil (60), og dels at hjemmet er klargjort til respiratorisk behandling (16,60,65), herunder at de respiratoriske hjælperes samt de pårørendes og patientens kompetencer er sikret (60,65). I forhold til klargøring af hjemmet anføres desuden, at der bør etableres en tidlig kontakt til og tæt, vedvarende dialog med lokale (kommunale) aktører involveret i den respiratoriske hjælp og pleje. Dette for dels at sikre tilstrækkelig tid til planlægning af disse aktørers indsats, og dels at sikre, at indsatsen koordineres i forhold til den hospitalsbaserede indsats, så risiko for uhensigtsmæssige forløb mindskes (63).

Etablering af et tværfagligt team bestående af en respiratorisk læge, respiratoriske hjælpere, en socialrådgiver og eventuelt specialiserede terapeuter med ansvar for planlægning og koordinering af forløb for udskrivning til eget hjem fremhæves i litteraturen at have organisatoriske potentialer i forhold til at sikre velfungerende forløb (16,60,65). Desuden anbefales, at en plan for den fremadrettede pleje og respiratoriske hjælp i hjemmet samt for systematisk monitorering og opfølgning udarbejdes og koordineres tværfagligt forud for overgangen til eget hjem (16,60).

Endelig fremhæves fyldestgørende og standardiseret informationsgivning til og forventningsafstemning med patient og pårørende som et sidste organisatorisk opmærksomhedspunkt i forhold til at understøtte hensigtsmæssig igangsætning af behandling samt et bæredygtigt behandlingsmiljø i hjemmet. Informationsgivning og forventningsafstemning anskues væsentligt i forhold til at identificere og eliminere væsentlige udfordringer for HMV (16,59).

Anvendelsen af telemedicin ved monitorering af patienter

Litteraturstudiet indikerer, at der kan være potentialer i anvendelsen af telemedicinsk monitorering af hjemmerespiratorpatienter (61,62). Således vurderes telemedicinsk mo-

monitorering overordnet at kunne forbedre kvalitetssikring af HMV. Dette for eksempel gennem fjernstyrede monitoreringsfunktioner og facilitering af informationsudveksling mellem patienter, pårørende og respiratoriske hjælpere i hjemmet og læger fra respirationscentret (61). Desuden muliggør telemedicinsk monitorering en vurdering af patienten i eget hjem, og kan dermed give et mere virkelighedsnært billede af patienten og dennes situation (33). Det understreges dog, at den egentlige værdi af telemonitorering skal vurderes på baggrund af en samlet betragtning af behandlingstilbud til patientgruppen, ligesom telemonitorering skal indtænkes som del af en samlet behandlingsstrategi (61).

Effekten af telemedicinsk monitorering er undersøgt i det inkluderede RCT-studie (62). Studiet viser, at for patienter i HMV kan telemedicinsk monitorering have positiv effekt på forebyggelse af indlæggelse, risikoen for akut forværring af patientens tilstand i hjemmet samt omfanget af ugentlige henvendelser til praktiserende læge eller hospitalet¹⁸. Desuden antydes telemedicinsk monitorering at være omkostningseffektiv (62). Studiet understreger dog behov for opfølgende forskning for at øge konklusionernes validitet (62). Dette bakkes op af flere studier, som efterspørger fremadrettet forskning i effekten af telemedicinsk monitorering med henblik på at afklare dennes omkostningseffektivitet og værdi i forhold til at øge behandlingskvaliteten (59,61).

Respiratoriske hjælpers kompetencer og oplæring

HMV forudsætter oplæring af de respiratoriske hjælpere, som skal varetage den respiratoriske overvågning og eventuelle pleje i hjemmet, da hjælpernes kompetenceniveau er afgørende for behandlings- og plejekvaliteten, herunder for risikoen for komplikationer i behandlingen (59). Det anbefales i litteraturen, at hjælpernes oplæring varetages før patienten udskrives fra hospitalet, samt at denne er holistisk tilrettelagt og individuelt tilpasset den enkelte patient. Samtidig anbefales oplæring at være baseret på standardiserede oplæringsmoduler inkluderende oplæring i respiratorisk behandling og håndtering af respiratorisk udstyr, plejeopgaver og medicin håndtering samt problemhåndtering (16). Endvidere anbefales kontinuerlig opfølgende kompetenceudvikling med henblik på at sikre opdaterede kompetencer (59). Anbefalingerne til den konkrete tilrettelæggelse af hjælperuddannelse og oplæring specificeres ikke, ligesom effekter og konsekvenser deraf ikke ekspliciteres.

Flere af de inkluderede kvalitative studier omhandler de respiratoriske hjælpers oplevelse af eget kompetenceniveau og egen uddannelse. Af disse fremgår, at individualiseret oplæring i patientens hjem er afgørende for oplevelsen af at levere kompetent respiratorisk hjælp til patienten. Sådan oplæring vurderes vigtigere end formel, teoretisk uddannelse, som ikke opleves at forberede hjælperne på de konkrete arbejdsopgaver og problemstillinger, som de står over for i patienternes hjem (64,66,68). Foruden individualiseret oplæring i hjemmet understreges løbende adgang til læge- og sygeplejefaglig su-

¹⁸ Der gøres opmærksom på, at dette, jf. bilag 7, især gælder for KOL-patienter.

pervision og support, fx i forbindelse med tvivlsspørgsmål eller opståede problemstillinger i hjemmet, at være afgørende for særligt ufaglærte hjælpere oplevede kompetence, selvtillid og opgavevaretagelse (64,66,68).

Udfordringer i hjemmet og hjælpernes psykiske arbejdsmiljø

De tre inkluderede kvalitative studier (63,64,66) beskæftiger sig alle med udfordringer ved at være hjælper til HVM patienter samt udfordringernes konsekvenser for det oplevede psykiske arbejdsmiljø.

Litteraturen viser, at respiratoriske hjælpere ofte finder relationen til patientens pårørende udfordrende. De pårørende opleves at have (uudtalte) forventninger til udførelsen af hjælpen og plejen, hvilket blandt hjælpere frembringer en følelse af at være overvåget og konstant på prøve med konsekvenser for det oplevede psykiske arbejdsmiljø (63,64). Problemstillingen fremhæves i et studie at være særligt fremtrædende blandt respiratoriske hjælpere til børn (66). Relationen til pårørende vurderes endvidere udfordrende som konsekvens af en oplevet ofte uklar ansvars- og rollefordeling mellem pårørende og respiratoriske hjælpere i forhold til patientens hjælp og pleje (63,64,66). Dette beskrives at medvirke til frustrationer og konflikter med konsekvenser for hjælpernes oplevede psykiske arbejdsmiljø (63).

De oplevede udfordringer og deres konsekvenser for det psykiske arbejdsmiljø vurderes i litteraturen at være en væsentlig årsag til nedslidning og udskiftning i hjælperhold samt til vanskeligheder med rekruttering af nye hjælpere (63). På den baggrund efterspørges organisatoriske initiativer, der kan imødekomme de oplevede udfordringer. Der peges i litteraturen på flere af sådanne. Skærpelse og formalisering af ansvars- og opgavefordeling mellem respiratoriske hjælpere og pårørende samt indledningsvis forventningsafstemning fremhæves befordrende. Samtidig påpeges en hensigtsmæssighed i, som del af hjælperoplæringen at fokusere på at ruste hjælperne til at håndtere grænsesætning i opgaveløsningen (63,64,66). At sikre mulighed for løbende sparring med fagfæller vurderes yderligere at understøtte dette (64). Endelig fremhæves etablering af muligheden for anvendelse af botilbud eller plejecentre som organisatorisk ramme for respiratorbehandling, som en måde at imødekomme udfordringer med begrænset mulighed for faglig sparring og problematisk psykisk arbejdsmiljø i patienternes hjem. Den nærmere udformning af sådanne organisatoriske rammer udfoldes ikke, og der rettes opmærksomhed på, at det ikke nødvendigvis modsvarer patienters og pårørendes ønsker og behov (63).

7.5 Organisering af HVM i dansk sammenhæng

I det følgende beskrives den danske organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HVM (analysespørgsmål 2). Beskrivelsen består af fire elementer. For det første beskrives de formelle rammer for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HVM. For det andet beskrives organisering af visitation til HVM, herunder kriterier for

henholdsvis henvisning til og igangsætning af HMV. For det tredje beskrives principper for og organisering af etablering og opfølgning på forløb med respiratorbehandling i eget hjem, herunder for oplæring af hjælperhold og kvalitetssikring af behandling. For det fjerde præsenteres eksisterende tværgående regionalt og kommunalt samarbejde.

Organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV rummer i en dansk sammenhæng en høj grad af kompleksitet. Beskrivelsen vil derfor fokusere på at præsentere et overordnet billede af organiseringen. Relevante regionale og kommunale ligheder og forskelle vil dog fremhæves, om end datamaterialet ikke muliggør at frembringe et systematisk overblik over disse forskelle og ligheder. Præsentationen baseres på den gennemførte interviewundersøgelse.

7.5.1 Formelle rammer for respiratorbehandling i eget hjem

Nedenfor beskrives de formelle rammer for HMV, som de fremgår af specialevejledningen samt i gældende lovgivning på området, herunder gældende bekendtgørelser og vejledninger.

HMV leveres i et samarbejde mellem de fem regioner, kommunerne og landets tre respirationscentre på henholdsvis Rigshospitalet, Glostrup (Respirationscenter Øst, herefter RCØ), Aarhus Universitetshospital, Skejby (Respirationscenter Vest, herefter RCV) og Odense Universitetshospital (Respirationscenter Syd, herefter RCS). Planlægning og håndtering af HMV varetages fortrinsvis inden for de enkelte regioner. For Region Nordjylland og Region Sjælland gælder dog, at man ikke har eget respirationscenter, men har købt sig til denne specialiserede ydelse hos henholdsvis RCV og RCØ. Desuden behandles børn i Region Syddanmark af RCØ eller RCV.

Organisering af HMV reguleres af flere samtidigt gældende formelle politisk-administrative og lovgivningsmæssige rammer. Diagnostik samt behandling og efterbehandling af kronisk respirationsinsufficiens udmøntes efter Sundhedslovens § 79, stk. 1. Der er i henhold til Sundhedsstyrelsens gældende specialevejledning for anæstesiologi af 9. september 2016¹⁹ tale om en højt specialiseret sygehusfunktion, som efter Sundhedsstyrelsens godkendelse varetages af respirationscentrene RCV, RCØ og RCS i formaliseret samarbejde med RCØ.

Der henvises i den gældende specialevejledning til 'Vejledning nr. 15875 af 19/12/1990 fra Sundhedsstyrelsen: Kronisk respirationsinsufficiens vedrørende visitation og sygehusbehandling af patienter, som lider af kronisk respirationsinsufficiens som følge af neuromuskulære lidelser, thoraxdeformiteter m.m.'²⁰. Sundhedsstyrelsen har den 1. marts

¹⁹ Specialevejledning for anæstesiologi af 9. september 2016. Tilgængelig på: <https://www.sst.dk/>.

²⁰ Vejledning nr. 15875 af 19/12/1990: Kronisk Respirationsinsufficiens Vedrørende visitation og sygehusbehandling af patienter, som lider af kronisk respirationsinsufficiens som følge af neuromuskulære lidelser, thoraxdeformiteter m.m. Ministeriet for Sundhed og Forebyggelse. 1990.

2017 offentliggjort en revideret samlet specialeplan, som træder i kraft den 1. juni 2017. I den reviderede specialevejledning for anæstesiologi²¹ henvises desuden til Sundhedsstyrelsens rapport 'Kronisk respirationsinsufficiens som følge af neuromuskulære lidelser, thoraxdeformiteter mv. – tilrettelæggelse af behandling'. Vejledningen og Sundhedsstyrelsens rapport specificerer og afgrænser principperne for tilrettelæggelsen af den samlede indsats for patientgruppen, herunder for diagnostik, behandling og efterbehandling. Desuden fastlægges i vejledning og rapport principper for fordelingen af opgaver og ansvar mellem de højt specialiserede funktioner og lokale funktioner i sygehusvæsenet samt mellem sygehusvæsen og kommuner (6).

HMV er en fortsættelse af den højt specialiserede sygehusbehandling. Hermed lægges det sundhedsfaglige ansvar for behandlingen hos de ansvarlige læger på respirationscentre, og behandlingen udgør en lægeforbeholdt virksomhed, som lægerne kan delegere til respiratoriske hjælpere. Det sundhedsfaglige ansvar ved brug af hjælpere omfatter oplæring og certificering af samt tilsyn med hjælperne. Lægerne skal også vurdere patienternes behov for respirationshjælpen, herunder omfanget af timer (udfoldes i 7.5.3).

Patienter, som modtager HMV, vil ofte også modtage hjælp og pleje efter servicelovens bestemmelser. Patienterne vil typisk modtage hjælp og pleje efter en eller flere af følgende paragrafer i serviceloven:

- §83: Personlig og praktisk hjælp i hjemmet (hjemmehjælp)
- §85: Socialpædagogisk bistand
- §95: Kontant tilskud til personlig og praktisk hjælp over 20 timer om ugen
- §96: Borgerstyret personlig assistance (BPA).

Uddybning af paragrafferne fremgår af Sundheds- og ældreministeriets vejledning nr. 10338 af 24/8 2015: 'Vejledning om fælles hjælperordninger til personer med kronisk respirationsinsufficiens'²². Udmåling af typen og omfanget af hjælp og pleje efter serviceloven foretages af patientens hjemkommune på baggrund af en individuel helhedsvurdering af patientens samlede behov for hjælp. Hjemkommunen har desuden tilsynspligten i forhold til løbende evaluering og eventuel justering af udmålingen. I forhold til arbejdsmiljø i patienternes hjem gælder arbejdsmiljølovgivningen for alle hjælperordninger til HMV-patienter. Det er således den pågældende arbejdsgivers pligt at sikre, at arbejdsmiljøet er sikkerheds- og sundhedsmæssigt fuldt forsvarligt.

²¹ Specialevejledning for anæstesiologi af 1. juni 2017. Tilgængelig på: <https://www.sst.dk/>.

²² Vejledning nr. 10338 af 24/8 2015: 'Vejledning om fælles hjælperordninger til personer med kronisk respirationsinsufficiens. Sundheds- og ældreministeriet 2015. Tilgængelig på: www.socialjura.dk.

Fælles hjælperordninger

Siden 2014 har regionsråd og kommunalbestyrelse (i patientens hjemkommune) været forpligtet til at indgå aftaler om fælles hjælperordninger for patienter med kronisk respirationsinsufficiens (jf. lov nr. 1537 af 27. december 2014 om ændring af sundhedsloven²³). Dette for at sikre at patienten får størst mulig indflydelse på eget liv og behandling af høj kvalitet. Endvidere søger lovændringen at medvirke til, at regionernes og kommunernes administration af de fælles hjælperordninger forenkles og samlet set reduceres. Den reviderede lovgivning ændrer ikke på, at myndighedsansvaret for respiratorbehandlingen påhviler regionerne og respirationscentrene, og myndighedsansvaret for at yde hjælp efter serviceloven påhviler patientens hjemkommune.

Der er tale om en fælles hjælperordning, når hjælp til respiratorbehandling i hjemmet efter § 79, stk. 1 i sundhedsloven og hjælp efter servicelovens §§ 83, 85, 95 eller 96 helt eller delvist kan varetages af de samme personer, og dermed kan tilrettelægges som en ordning til gavn for patienten og ressourceanvendelsen. Desuden er der tale om fælles hjælperordninger for børn, som har hjælpere til respiratorbehandling efter sundhedsloven og hjælpere efter serviceloven § 83 i kraft af henvisning i serviceloven § 44.

Etablering og administration af de fælles hjælperordninger reguleres af 'Bekendtgørelse om fælles hjælperordninger til personer med kronisk respirationsinsufficiens' (bkg. nr. 987/2015²⁴) samt 'Vejledning om fælles hjælperordninger til personer med kronisk respirationsinsufficiens' (jf. ovenfor). Desuden specificeres og understøttes samarbejdet om de fælles hjælperordninger af lovpligtige samarbejdsaftaler mellem hver af regionerne og regionens kommuner udarbejdet og indgået ultimo 2016. Samarbejdsaftalerne er overordnede rammeaftaler, der er ens for alle fælles hjælperordninger. Aftalernes specifikke indhold og udformning varierer i mindre grad på tværs af regioner, men omhandler alle overordnet den samlede tilrettelæggelse af fælles hjælperordninger, herunder definition af målgruppe og specifikation af henholdsvis ansvars- og opgavefordeling samt praktiske foranstaltninger og emner, der erfaringsmæssigt giver anledning til tvivlsspørgsmål eller uenigheder. Desuden specificeres i aftalerne principper for fordeling af de samlede udgifter til hjælperordningerne mellem regionen og regionens kommuner. For fælles hjælperordninger uden særlige omstændigheder eller specifikt aftalte principper for fordeling gælder således, at regionen afholder 67 % og kommunerne 33 % af de samlede udgifter.

7.5.2 Visitation til respiratorbehandling i eget hjem

Nedenfor beskrives organisering af visitation til HVM dels for henvisning til vurdering på respirationscentrene, dels for igangsætning af behandlingen.

²³ Lov om ændring af sundhedsloven (Hjælperordninger til personer med kronisk respirationsinsufficiens). Sundheds- og Forebyggelsesministeriets lov nr. 1537 af 27/12 2014. Tilgængelig på: www.socialjura.dk.

²⁴ Bekendtgørelse om fælles hjælperordninger til personer med kronisk respirationsinsufficiens, Sundheds- og Ældreministeriet, 2015.

Henvisning til respirationscentret

Det fremgår af interviewundersøgelsen, at henvisning til respirationscentret med henblik på vurdering og eventuel igangsætning af respiratorisk behandling i eget hjem kan foretages af såvel almen praksis som specialiserede rehabiliteringscentre og hospitalsafdelinger. Patienter henvises fortrinsvis fra intensivafdelinger, neurologiske afdelinger, børneafdelinger samt lungemedicinske afdelinger, som typisk varetager diagnostik og behandling af den/de) bagvedliggende sygdom(me).

Af de interviewede læger såvel som Sundhedsstyrelsens rapport vedrørende kronisk respirationsinsufficiens (6) fremgår, at patientgruppen, der kandiderer til HMV, vanskeligt lader sig afgrænse præcist. Med henvisning til Sundhedsstyrelsens Vejledning af 1990 (jf. ovenfor) karakteriseres målgruppen overordnet ved at være ramt af kronisk respirationsinsufficiens, oftest betinget af ekstrapulmonale årsager, og deraf behov for specialvurdering og respiratorisk behandling. *"Hoveddiagnosen vil typisk forekomme inden for diagnosegrupper som spinal muskelatrofi, muskeldystrofier (muskelsvind), polio (børnelammelse), svære trafikskader, svære scolioser (rygskævhed) samt enkelte andre specielle nervesygdomme og lungelidelser"* (6).

I interviewene klarlægges, at Sundhedsstyrelsens beskrivelse af målgruppen er retningsvisende for, hvilke patienter der kan henvises til udredning og behandling på respirationscentrene. Desuden specificeres, at henvisning af patienter herudover baseres på et eller flere af følgende objektive kriterier, udarbejdet i et samarbejde mellem de tre respirationscentre med henblik på at opnå klare og kvalitetsmæssigt bedre henvisninger til centrene (jf. også Sundhedsstyrelsens rapport (6)):

- Vitalkapacitet < ca. 50 % (specifikt for ALS vitalkapacitet < ca. 70 % af forventet)
- PaCO₂ > 6.0 kPa
- Symptomer på natlig hypoventilation
- Symptomer på faldende iltmætning

Endelig fremgår af interviewundersøgelsen, at der i henvisningen til respirationscentrene stilles krav om at beskrive patienten, hvad angår henvisningsdiagnose og -årsag, anamnese, komorbiditet, objektive fund, relevante undersøgelsesresultater, fx fra lungefunktionsundersøgelse og søvnmålinger, subjektive respirationsklager samt funktionsniveau med hensyn til ekstremiteter (særligt håndfunktion), kognition og tale- og kommunikationsevner. De objektive kriterier og krav til henvisning fremgår af respirationscentrenes hjemmesider.

Med henvisning til Sundhedsstyrelsens rapport (6) og interviewundersøgelsen forløber henvisning til respirationscentrene overordnet på en af to måder:

1. For en gruppe af patienter, fortrinsvis patienter med langsomt progredierende sygdomme og ofte med tilstande, hvor sygdommens naturhistorie og udvikling (hastighed) kendes, sker henvisning på et tidspunkt, hvor det i almen praksis eller på henvisende afdeling vurderes, at respirationsinsufficiensen tiltager i en grad, at der snart vil være behov for stillingtagen til, om patienten ønsker og kan tilbydes HMV. Der er for respirationscentrene her ofte tale om allerede kendte patienter, som har været tilset ambulant over en kortere eller længere periode.
2. For den anden gruppe af patienter, fx som konsekvens af traumer, akut opstået respirationsinsufficiens eller hurtigt progredierende sygdomsforløb, er patienten indlagt til behandling på anden sygehusafdeling og skal færdigbehandles og stabiliseres til habituel fase, før henvisning til respirationscentret og eventuel igangsætning af respiratorbehandling kan ske. Der kan på den henvisende afdeling eventuelt allerede være blevet iværksat akut (invasiv) respiratorbehandling. Der er for respirationscentrene her ofte tale om ikke på forhånd kendte patienter.

Af interviewundersøgelsen fremgår det, at der i forbindelse med størstedelen af patienterne ikke opleves tvivl om henvisning til respirationscentret. For nogle patienter, særligt blandt traumepatienter og patienter med akut opstået respirationsinsufficiens, kan der dog herske tvivl. Der lægges på tværs af respirationscentrene her vægt på, at henvisende afdelinger i sådanne situationer tager kontakt til og konsulterer respirationscentrets læger for at kvalificere beslutningstagen om henvisning. Dette enten telefonisk eller ved besøg af en respiratorisk læge på den konkrete afdeling. På RCØ har denne funktion siden ultimo 2013 været formaliseret i form af ansættelse af en udgående læge. Med henblik på at sikre kvalificeret og rettidig henvisning til respirationscentret varetager den udgående læge ugentlig rådgivning (telefonisk og/eller ved besøg) af læger på henvisende afdelinger i forhold til vurdering af patienter. Lignende formaliserede funktioner findes ikke på RCS og RCV.

Beslutning om igangsætning af HMV

Beslutning om igangsætning af HMV forudsætter informeret samtykke ved fysisk tilstedeværelse fra patienten eller for børn under 15 år og inhabile fra forældre, nærmeste pårørende eller en respiratorisk læge. Beslutningen er lægefaglig og varetages af respirationscentrenes læger. Det fremgår dog af interviewundersøgelsen, at den forudgående drøftelse og vurderingen af igangsætning af respiratorbehandling på alle respirationscentrene baseres på tværfaglig diskussion. På RCØ og RCS foregår dette på tværfaglige konferencer med tilstedeværelse af både læger fra respirationscentret, sygeplejersker og socialrådgivere. Dette med henblik på at understøtte kvalificeret beslutningstagen og ensartethed i henvisnings- og igangsætningspraksis. Samme grad af formalisering gør sig ikke gældende på RCV.

Interviewundersøgelsen viser, at grundlaget for beslutning om igangsætning af behandling i høj grad er multifaktoriel. Overordnet udgøres beslutningsgrundlaget af en kombination af foreliggende kriterier for igangsætning af behandling, resultater af objektive målinger og undersøgelser foretaget på respirationscentrene samt samtale med patienten og eventuelt dennes pårørende.

- *Kriterier for igangsætning af behandling:* Det fremgår af interviewundersøgelsen, at der foruden Sundhedsstyrelsens rapport (6) og vejledning (1990) ikke foreligger nationale generelle og diagnosespecifikke kliniske retningslinjer for igangsætning af HMV. På RCV understøttes beslutningstagen om igangsætning af respiratorisk behandling i eget hjem for patienter med ALS og Duchennes muskeldystrofi dog af lokalt udarbejdede forløbsbeskrivelser med henblik på at sikre et ensartet, gennemskueligt beslutningsforløb. Forløbsbeskrivelserne specificerer visitationskriterier, undersøgelser og målinger samt overordnede anbefalinger vedrørende igangsætning af HMV for patientgrupperne. Forløbsbeskrivelsernes specifikke indhold fremgår af bilag 8. Der forefindes ikke forløbsbeskrivelser på RCS og RCØ. Dog understøttes beslutningstagen på RCØ af en lokalt udarbejdet instruks for igangsætning og afslutning af respiratorisk behandling for at sikre en ensartet og lovhjemlet ordination af HMV. For ALS-patienter er nationale retningslinjer for visitation til og igangsætning af non-invasiv og invasiv respiratorbehandling desuden under udarbejdelse i et samarbejde mellem Dansk Selskab for Forskning i ALS og Rehabiliteringscenter for Muskelsvind med reference til foreliggende internationale retningslinjer. Interviewundersøgelsen viser, at foreliggende internationale og europæiske kriterier for og evidensbaserede, kliniske retningslinjer vedrørende igangsætning af respiratorisk behandling ikke anvendes eksplicit i respirationscentrenes beslutningstagen, men det specificeres af de interviewede læger fra respirationscentrene, at internationale visitationskriterier og retningslinjer indgår som del af den lægefaglige viden og dermed som implicit vurderingsgrundlag i beslutning om igangsætning af behandling. Desuden er forløbsbeskrivelserne på RCV udarbejdet med reference til de internationale kriterier og retningslinjer.
- *Undersøgelser og målinger:* For at vurdere graden af symptomer på respiratorisk insufficiens og/eller hypoventilation med henblik på at fastlægge behandlingsbehovet foretages på respirationscentrene objektive, standardiserede målinger og undersøgelser. Dette involverer undersøgelse og måling af udvalgte respiratoriske parametre i vågen og sovende tilstand, søvnmålinger, herunder af søvnkvalitet, undersøgelse af lungefunktion samt hvis relevant blodprøver og undersøgelse af hjertefunktion. For RCV er relevante undersøgelser og målinger for Duchennes muskeldystrofi og ALS specificeret i de foreliggende forløbsbeskrivelser.

- *Samtale med patient (og pårørende):* Endelig foretages af læger fra respirationscentret samtale med patient og eventuelt pårørende forud for vurdering og beslutning om igangsætning af respiratorbehandling. Dette med henblik på at fremlægge de eksisterende behandlingsmuligheder (respiratorisk non-invasiv/invasiv behandling og hvis relevant palliativ medicinsk behandling), drøfte patientens ønsker til behandling, samt foretage forventningsafstemning i forhold til muligheder og konsekvenser ved respiratorisk behandling i eget hjem for patientens (og de pårørendes) liv og hverdag. Dette med formålet at kunne sætte resultater af undersøgelser og målinger samt objektive kriterier i sammenhæng med hvor patienten er i sit liv, og hvad patienten ønsker, og derved fremme igangsætningen af hensigtsmæssige og ønskede behandlingsforløb. Samtalen tjener desuden til at klarlægge patientens stabilitet og habilitet samt hjemmets egnethed, som også indgår som parametre i beslutningsgrundlaget. Det fremgår af interviewundersøgelsen, at samtalens karakter tilpasses den enkelte patient, dennes diagnose og sygdomsforløb, fx i forhold til vægtlægning af palliativ medicinsk behandling som relevant behandlingsalternativ. Specifikt for ALS-patienter arbejdes på RCV på at systematisere inddragelse af palliativt team. Desuden er der på RCV blevet bevilget finansiering fra Sundhedsstyrelsen til i et samarbejde mellem respirationscentret, neurologisk og intensiv afdeling at udvikle og implementere et beslutningsstøtteværktøj til at understøtte samtale om behandlingsmuligheder med ALS-patienter og deres pårørende. Dette med henblik på at bidrage til at kvalificere og systematisere beslutningstagen vedrørende igangsætning af respiratorbehandling, herunder systematisk at klarlægge muligheder og konsekvenser ved respiratorisk behandling, tegne et realistisk billede af hverdagen som respiratorbruger med overvågning samt facilitere en ligeværdig drøftelse af respiratorbehandling og palliativ medicinsk behandling. Der forefindes ikke lignende formaliserede beslutningsstøtteværktøjer på RCØ og RCS, ligesom de aktuelt ikke findes for andre patientgrupper.

Interviewundersøgelsen viser, at beslutning om igangsætning af HMV samlet set karakteriseres ved en læge- og sygeplejefaglig beslutning, hvori patientens totale situation tages i betragtning, og som derfor inddrager mange typer af viden, som kan vægtes forskelligt mellem forskellige patienter og mellem forskellige læger. Dette har som konsekvens, at der kan forekomme mindre variationer læger i mellem, i forhold til om og hvornår behandling sættes i gang. Dog fremstår at være enighed om størstedelen af patientgruppen (for uddybning se afsnit 7.6.1).

7.5.3 Etablering og opfølgning på forløb med respiratorbehandling i eget hjem

I dette afsnit beskrives principper for og organisering af etablering af hjælperordninger, oplæring af hjælperhold samt opfølgning, kvalitetssikring og monitorering af HMV.

Etablering af hjælperordning

Med henvisning til de beskrevne formelle rammer for HVM fastlægges patientens behandlingsbehov af respirationscentrene (jf. afsnit 7.5.1). Fastlæggelsen indbefatter typen af respiratorisk behandling (invasiv eller non-invasiv behandling), omfanget af timer som patienten har behov for respiratorisk behandling i samt indikation for overvågning af hjælperhold (inkl. krav til hjælperholdets faglighed). For børn tilrettelægges overvågning altid med høj faglighed. Det fremgår af interviewundersøgelsen, at fastlæggelsen foretages på respirationscentrenes tværfaglige konferencer og baseres på den indledende undersøgelse og vurdering af patienten (jf. ovenfor) og i nogle tilfælde dialog med patientens hjemkommune.

For patienter, der i tillæg til den respiratoriske behandling modtager eller skal modtage hjælp og pleje efter servicelovens bestemmelser, udmåles denne af patientens hjemkommune (jf. afsnit 7.5.1). Udmålingen foretages på baggrund af ordinationsbrev og orienteringsskrivelse fra respirationscentret eller regionen (afhængig af specifik regional organisering) og indbefatter beslutning af såvel omfanget af hjælp/pleje efter servicelovens bestemmelser som udformningen af denne, herunder hvilken paragraf hjælpen/plejen skal leveres efter, om hjælpen/plejen kan varetages som fælles hjælperordning samt krav til hjælpernes faglighed. Interviewundersøgelsen viser, at udmålingen foretages på baggrund af en konkret, individuel helhedsvurdering af patientens samlede behov for hjælp. Foruden udmålingen af plejen, varetager patientens hjemkommune vurdering af hjemmets egnethed til respiratorisk behandling med overvågning samt eventuel nødvendig klargøring heraf, herunder anskaffelse af fornødne hjælpemidler.

Interviewundersøgelsen indikerer mindre forskelle i regionernes rolle i forbindelse med etablering af hjælperordninger. Fælles for alle regioner er ansvaret for i samarbejde med kommunerne at koordinere og håndtere den økonomiske fordeling af udgifter til hjælperordningerne. Desuden varetages kontakt til hjælperbureauer i forbindelse med etablering af hjælperhold i nogle regioner af regionsmedarbejdere.

Det fremgår af interviewundersøgelsen, understøttet af RCV's forløbsbeskrivelser og RCØ's instruks for start og slut af behandling, at der generelt forekommer to typer af forløb for etablering af HVM:

1. Det planlagte, elektive forløb, hvor patienten på et planlagt tidspunkt indlægges på respirationscentret med henblik på etablering af den respiratoriske behandling. Patienten vil typisk have et allerede etableret hold af personlige hjælpere, og oplæring af hjælperne vil derfor foregå under indlæggelsen.
2. Det akutte forløb, hvor der akut er blevet etableret respiratorisk behandling på intensiv afdeling, som kræver overvågning. Patienten vil typisk ikke i forvejen have

egne personlige hjælpere, og et hjælperhold skal således sammensættes i samarbejde med patientens hjemkommune og regionen.

Interviewundersøgelsen viser, at der mellem respirationscentrene forekommer forskelle i processen for etablering af hjælperordninger for akutte forløb. Respirationscentrene har ikke kapacitet til indlæggelse af patienter, mens etablering af hjælperordningen pågår. På RCV anvendes derfor midlertidige professionelle vikarbureauer til at varetage patientens respiratoriske hjælp i hjemmet, mens afklaring af typen af hjælperordning samt rekruttering af permanent hjælperhold pågår i patientens hjemkommune. Dette for at sikre en hurtig udskrivningsfrekvens fra hospitalet og for at sikre patientens livskvalitet. Tidshorisonten for etablering af de permanente hjælperhold på RCV varierer, men vurderes typisk at være op til seks måneder. På RCS og RCØ forbliver patienter indlagt på intensiv afdeling, i mindre grad på anden stamafdeling, mens afklaring af hjælperordning og rekruttering af hjælperhold pågår. For patienter tilknyttet RCS forestås afklaring og rekruttering af patientens hjemkommune, mens henholdsvis Region Sjælland og Region Hovedstaden varetager denne opgave for patienter tilknyttet RCØ. Tidshorisonten for etablering af hjælperhold fastslås for patienter tilknyttet RCS at være ca. halvanden måned, mens der for patienter tilknyttet RCØ stilles krav til regionen om at etablere hjælperhold inden for fire uger. På tværs af alle tre respirationscentre påpeges ventetid i forbindelse med etableringer af hjælperordninger som en væsentlig udfordring, både økonomisk og i forhold til behandlingskvalitet. Respiratorisk oplæring af permanente hjælperhold for akutte patienter foregår som for planlagte patienter under indlæggelse på respirationscentrene, når hjælperholdet er etableret (udfoldes nedenfor).

Interviewundersøgelsen viser betydelig såvel regional som kommunal variation i præferencer og praksis vedrørende organisering af hjælperordningerne, særligt i forhold til hvilke paragraffer i serviceloven hjælperordningerne fastlægges efter, samt hvordan hjælperordningerne forankres. Således varierer graden af brug af BPA-ordninger, hvor patienten selv varetager arbejdslederansvaret og enten selv varetager arbejdsgiveransvaret eller uddelegerer dette til en nærtstående pårørende eller et hjælperbureau, såfremt patienten vurderes egnet ud fra servicelovens bestemmelser. På samme vis varierer det, hvorvidt og i hvor høj grad kommuner anvender egne hjemmehjælpere til hjælperhold, samt i hvor høj grad der enten i regionalt regi eller kommunalt regi entreres med private hjælperbureauer til varetagelse af den respiratoriske hjælp og plejen. Af sidstnævnte variation følger således også en regional variation i forhold til, om regionen eller kommunen er ansættende myndighed.

Uddannelse og oplæring af hjælperhold

I overensstemmelse med det delte myndighedsansvar for HVM påhviler ansvaret for uddannelse, oplæring og certificering af hjælperholdene i respiratorisk overvågning respirationscentrene. Såfremt der etableres en fælles hjælperordning, hvor hjælperne samtidig

med den respiratoriske overvågning varetager hjælp og pleje efter serviceloven, påhviler ansvaret for sikring af hjælpernes kvalifikationer heri kommunerne.

Der foreligger ingen nationale retningslinjer for uddannelse og oplæring i respiratorisk overvågning. På alle respirationscentre anvendes dog standardiserede, lokalt udarbejdede retningslinjer for uddannelse og oplæring med henblik på at sikre struktureret og ensartet oplæring. Interviewundersøgelsen viser en overvejende ensartet organisering af uddannelse og oplæring på tværs af respirationscentrene med mindre lokale variationer i forhold til blandt andet specifikke kvalifikationskrav som konsekvens af forskellige arbejdsgange og præferencer. Oplæring af respiratoriske hjælpere indbefatter såvel teoretiske som praktiske elementer og foregår under indlæggelse af patienten i samarbejde med en certificeret sygeplejerske på respirationscentret. Hjælperopplæringen varer 2-4 uger.

Af de lokale retningslinjer såvel som af interviewundersøgelsen fremgår stor overensstemmelse i de kompetencer, hjælpere skal certificeres i. Uddannelse og oplæring baseres på en række kompetencekort, der alle kræver godkendelse af den oplærende sygeplejerske på afdelingen før end certificering opnås. Antallet af kompetencekort varierer fra 14 til 21. De specifikke, overordnede kompetencekort for hvert respirationscenter fremgår af tabel 7.6 nedenfor. På tværs af respirationscentrene gælder, at hjælpernes uddannelse og oplæring tilpasses den specifikke patients behov og respiratoriske udstyr, og der er således ikke tale om en generel uddannelse og oplæring i respiratorisk overvågning.

Tabel 7.6. Emner for respiratorisk oplæring af hjælperhold i retningslinjer for oplæring

RCV	RCØ	RCS
Håndhygiejne	Håndhygiejne	Håndhygiejne
Ilt på respirator - generel information	Ilt	Ilt
Fugter	Fugter og slangesystem	Fugter og slangesystem
Trakeostomipleje	Trakeostomipleje	Trakeostomipleje
Kuffertsug og transportsug	Stationært sug og transportsug	Stationært sug og transportsug
Turtaske	Turtaske	Turtaske
Manuel ventilation	Manuel ventilation	Manuel ventilation
Sugning i trakeostomituben	Sugning	Sugning
Sugning i næse og mund	Sugning i næse og mund	Sugning i næse og mund
Tuben/tubeskift, taleventil og prop	Tubeskift	Tubeskift, inderkanyler, taleventil og prop
Cuff - afcuffning og tilcuffning	Cuff	Cuff
Generel introduktion til det respiratoriske udstyr	Respirator	Trilogy-respirator
	Ansvar	Ansvar
Andet		
Akutsituation	Inderkanyler	Åndedrætsorganerne
Manuel ventilation med sterilt saltvand	Weinmann noise reductor	
PLV 100 hjemmerespirator	Ensretterventil	
Skift af velcrobånd/sølvkæde	Nonin pulsoxymeter	
Vivo 50 hjemmerespirator	Taleventil, svensk næse og prop	
Forflytninger med respirator	Aeroneb © Forstøversystem	
Medicinforstøver	Suctionaid-tube	
Rengøring af det respiratoriske udstyr		
Varebestilling		

Ved udskiftning af respiratoriske hjælpere foregår uddannelse og oplæring som en kombination af sidemandsoplæring ved de øvrige hjælpere i patientens hjem og teoretisk undervisning på respirationscentret.

Hvad angår hjælpernes oplæring i hjælp og pleje efter serviceloven foregår denne i patientens hjem. Dette gælder for såvel nye hjælperhold som ved udskiftning i hjælperhold. Interviewene viser, at i modsætning til den respiratoriske uddannelse og oplæring er den plejemæssige oplæring ikke formaliseret. Den specifikke udformning og varetagelsen heraf varierer som konsekvens på tværs af respiratoriske ordninger og kommuner. Af interviewundersøgelsen fremgår, at hvis respiratorbrugeren får tildelt hjælp efter servicelovens §83, er det hjemmeplejen/hjemmesygeplejersken, der varetager oplæring i de uddelegerede kommunale ydelser. Derimod gælder for BPA-ordninger efter servicelovens §95 og §96, at det er patienten selv, en nærtstående pårørende eller et hjælperbureau,

der via sin rolle som arbejdsgiver har ansvaret for sikringen af hjælpernes plejekompetencer i samarbejde med arbejdslederen (ved § 96 patienten og §95 pårørende eller hjælperbureau).

Opfølgning, kvalitetssikring og monitorering

I overensstemmelse med det delte myndighedsansvar, er opfølgning, kvalitetssikring og monitorering et delt ansvar mellem respirationscentrene/regionerne og kommunerne. Tilsynspligten med og det sundhedsfaglige ansvar for opfølgning, kvalitetssikring og monitorering af respiratorisk behandling i eget hjem påhviler således respirationscentrenes læger.

Der foreligger ikke nationale standarder og kliniske retningslinjer vedrørende kvalitetssikring og monitorering af HVM. Disse efterspørges i nogen grad blandt de adspurgte læger fra respirationscentrene. Interviewundersøgelsen viser, at opfølgning, kvalitetssikring og monitorering på de enkelte respirationscentre er implementeret og varetages gennem forskellige rutinemæssige, og i høj grad overensstemmende, organisatoriske initiativer og praksisser. For det første gennem den standardiserede og formaliserede tilgang til oplæring og uddannelse af respiratoriske hjælperhold. For det andet benyttes på alle respirationscentre en udgående sygeplejerske, der varetager opfølgning på og problemløsning samt kvalitetssikring af den respiratoriske overvågning i patientens hjem. For det tredje tilses patienterne på alle respirationscentre med varierende tidsintervaller, fra måneder op til årligt, hvor også det respiratoriske udstyr efterses, og hjælperordningernes kapacitet (re)vurderes. Endelig har alle respirationscentre en telefonisk hotline, hvor patienterne og deres hjælpere kan ringe ind hele døgnet med henblik på dialog om og løsning af faglige og samarbejdsrelaterede problemstillinger samt tekniske defekter/fejl.

Som ved kvalitetssikring af respiratorisk hjælp foreligger ikke nationale standarder og retningslinjer for kvalitetssikring og monitorering af de plejemæssige ydelser for patienter med hjælp og pleje efter serviceloven, og der forekommer variation i kvalitetssikringens systematik. Interviewundersøgelsen viser, at opfølgning, kvalitetssikring og monitorering fortrinsvis foregår ved rapportering fra sygeplejersker eller hjemmehjælp, hvis og når disse kommer i patientens hjem. Generelt viser interviewene dog stor variation i, i hvor høj grad og på hvilken måde kommunerne håndterer kvalitetssikring og monitorering af plejen, og i hvor høj grad de anser sig selv for ansvarlige herfor, eller om kvalitetssikring og monitorering forventes varetaget af den givne arbejdsgiver. Kommunerne varetager desuden en løbende vurdering af den aktuelle udmålte pleje og hjælp, hvad angår såvel type som omfang.

Sundhedsstyrelsen konkluderede i rapporten fra 2012 at der for fremtidigt at etablere *"(...) et validt grundlag for fremtidige beslutninger og systematisk kvalitetssikring og overvågning vil forskning og udvikling skulle tilgodeses, herunder vil systematisk doku-*

mentation, etablering af kliniske databaser, standarder mv. skulle udvikles såvel som vedligeholdes". Interviewundersøgelsen klarlægger, at sikring af dette fortsat er vigtigt at have opmærksomhed på, såvel på respirationscentre som i regionerne (6).

Interviewundersøgelsen viser, at en del af opfølgningen på hjemmerespiratorordningerne for såvel kommuner, regioner og respirationscentre vedrører håndtering af løbende udskiftning i hjælperhold. Ansvar for rekruttering af nye hjælpere afhænger af ordningernes forankring, men foregår typisk ved lokal annoncering eller gennem hjælperbureauerne. For respirationscentre indebærer udskiftning oplæring af nye hjælpere. For regionerne og kommunerne indebærer udskiftning overordnet sagsbehandling i forbindelse med opsigelser og ansættelser samt oplæring af hjælpere, men det afhænger af de specifikke ordningers forankring og udformning.

7.5.4 Kommunikation og samarbejde

Interviewundersøgelsen viser, at samarbejdet mellem respirationscenter, region og kommuner i forhold til forløb for patienter i respiratorbehandling hjemme generelt betragtes som velfungerende. En central årsag til dette vurderes på tværs af de adspurgte aktører at være placering af opgavevaretagelsen og ansvaret for patientgruppen hos få medarbejdere såvel i kommunerne som i regionerne. Det styrker kendskabet til området hos den enkelte medarbejder samt til andre involverede aktørers ansvarsområder og opgavevaretagelse, hvilket opleves centralt for, hvordan hjemmerespiratorordninger forløber grundet områdets og patienternes kompleksitet. På samme måde italesættes hyppig udskiftning i regionale og kommunale medarbejdere som udfordrende for samarbejdet aktørerne imellem og dermed for ordningernes forløb. Der vurderes i den forbindelse af flere adspurgte aktører en hensigtsmæssighed i udarbejdelsen af skriftlige beskrivelser af ansvarsområder og opgavevaretagelse. Interviewundersøgelsen viser endvidere, at de etablerede samarbejdsaftaler mellem kommuner og region, jf. afsnit 7.5.1, forventes at ville bidrage til yderligere at styrke samarbejdet region og kommuner imellem. Dette særligt gennem præciseringen af opgavefordelingen og den fastlagte udgiftsfordeling som i nogle kommuner og regioner opleves tidligere at have været ressourcekrævende at forhandle på plads. Der forventes dog både fra regional og kommunal side fortsat at ville være behov for specifikke drøftelser og præciseringer relateret til nogle patienter.

I Region Nordjylland og Region Sjælland italesættes mindre udfordringer ved ikke at have eget respirationscenter. Udfordringerne opleves særligt blandt regionsrepræsentanterne og repræsentanter fra respirationscentre i Region Midtjylland og Hovedstaden med ansvaret for HMV i de to regioner. Særligt knytter udfordringerne sig til uklarheder om snitflader og ansvarsfordeling region og respirationscenter imellem relateret til mindre indsigt i hinandens arbejdsgange, administrative processer og sagsbehandling som konsekvens af geografisk afstand og forskellig regional forankring. Samarbejdet vurderes som konsekvens af de særlige betingelser at kræve flere ressourcer at etablere og opretholde, men opleves trods dette som velfungerende. Dette særligt som konsekvens af pla-

cering af opgavevaretagelsen og ansvaret vedrørende sagsbehandling af den specifikke regions respiratorpatienter hos få medarbejdere i såvel respirationscentret som regionen.

Hvad angår tværgående samarbejde og sparring regioner imellem og kommuner imellem viser interviewundersøgelsen, at dette er begrænset og ikke formaliseret. Der italesættes blandt både regions- og kommunerepræsentanter en interesse i at styrke den tværkommunale og tværregionale sparring blandt andet med henblik på vidensdeling og erfaringsudveksling.

Endelig viser interviewundersøgelsen, at der mellem respirationscentrene i nogen grad forekommer samarbejde og sparring. Sundhedsstyrelsen anbefalede i 2012 i sin rapport vedrørende kronisk respirationsinsufficiens (6), at respirationscentrenes samarbejde styrkes, blandt andet med henblik på udvikling af fælles nationale retningslinjer, henvisnings- og behandlingsindikationer og kriterier, standarder mv. samt af ensartede og fælles opgørelsesmetoder for aktivitet og ventetider med henblik på effektiv monitorering af udviklingen på området (6). Interviewundersøgelsen viser, at der på den baggrund siden 2012 har været en større opmærksomhed på at sikre løbende dialog og samarbejde på tværs af centrene i forhold til koordinering af henvisningspraksis, behandlingsprincipper og indsats, ensretning af uddannelse og oplæring af hjælperhold samt udvikling af mere sammenlignelige opgørelser og rapportering af ventelister og aktivitet. Dette fx gennem regelmæssige, formaliserede møder centrene imellem. Samtidig understreges dog, at der fortsat forekommer mindre lokale variationer centrene imellem fx i forhold til specifikke instrukser og tilrettelæggelse af uddannelse og oplæring som konsekvens af forskellige arbejdsgange, ledelse og geografisk kontekst.

7.6 Oplevede organisatoriske udfordringer og perspektiver på fremadrettet visitationspraksis og organisering

I dette afsnit beskrives udfordringer og muligheder i den aktuelle organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV (analyse spørgsmål 3). Desuden præsenteres perspektiver på fremadrettet organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV-potentialer i forhold til at imødekomme de eksisterende organisatoriske udfordringer, samt i forhold til at sikre en fremadrettet hensigtsmæssig visitationspraksis og høj kvalitet i behandling (analyse spørgsmål 4).

Afsnittet baseres dels på de udfordringer og muligheder samt perspektiver på fremadrettet organisering, som blev identificeret af de læger fra respirationscentrene og de kommunale og regionale aktører ved fokusgruppeinterviewene, dels på de internationale erfaringer præsenteret i det systematiske litteraturstudie.

Som beskrevet rummer organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV i en dansk sammenhæng en høj grad af kompleksitet. Det afspejles i de italesatte

udfordringer, muligheder og perspektiver på fremadrettet organisering. Afsnittet fokuseres derfor på præsentationen af fem områder for udfordringer, hvor der på baggrund af den samlede organisationsanalyse vurderes at være de største potentialer i forhold til fremadrettet organisering. De fem områder relaterer sig især til visitation og opstart af HMV, og tematiseres efter de tre overordnede kategorier 'Visitation og igangsætning af forløb', 'Igangsætning af forløb' og 'Etablerede forløb'. Desuden skal bemærkes, at de italesatte udfordringer overvejende relaterer sig til visitation til og etablering af akutte patientforløb og ikke i så høj grad planlagte forløb. Afslutningsvis præsenteres to perspektiverende områder med potentiale i forhold til fremadrettet organisering af HMV.

7.6.1 Visitation og igangsætning af forløb

Kriterier for henvisning til og igangsætning af behandling

På tværs af de tre respirationscentre bemærkes en vækst i antallet af patienter, som henvises til respirationscentrene med henblik på igangsætning af HMV. Det vurderes, at hovedparten af de henviste patienter fortsat befinder sig inden for målgruppen, som den specificeres og afgrænses af Specialevejledningen for Anæstesiologi og Sundhedsstyrelsens Vejledning fra 1990 (jf. afsnit 7.5.2). Der bemærkes dog en stigende tendens til, at henvisninger også modtages fra patientgrupper, som enten hidtil ikke i et lægefagligt perspektiv har været betragtet som en del af målgruppen for HMV, eller hvor den gældende definition og afgrænsning af målgruppen giver anledning til tvivl om, hvorvidt patienterne skal tilbydes behandling. Udfordringerne henføres særligt til karakteren af den gældende beskrivelse og afgrænsning af målgruppen, som opleves at rumme fortolkningsmuligheder. Særligt opleves dette at gælde formuleringen 'enkelte andre specielle nervesygdomme og lungelidelser'. Uklarhederne skønnes at bidrage til variation på tværs af respirationscentrene og regionerne i forhold til, om de samme patienter henvises og tilbydes HMV-behandling. Derudover kan uklarheder i henvisningskriterier sammenholdt med et øget pres fra henvisende afdelinger føre til, at der langsomt sker et indikations-skred, uden man eksplicit har taget stilling til, om indikationsskredet er hensigtsmæssigt.

Udfordringer relateret til lokal fortolkning og deraf lokal og national variation i henvisningspraksis genfindes i litteraturstudiet, hvor variationen tilskrives mangel på klare standarder og retningslinjer for respiratorisk hjælp og pleje, der bygger på evidensbase-ret viden. Disse udfordringer anbefales i litteraturen imødekommet gennem tydeliggørelse af kriterier for og anbefalinger til visitation til HMV, fx gennem udvikling af nationale kliniske retningslinjer. Væksten i efterspørgslen på behandling og i igangsatte patientforløb med HMV bemærkedes desuden i Sundhedsstyrelsens rapport (2012). Det blev her anbefalet at imødekomme væksten gennem vedvarende opmærksomhed på at fastholde og videreføre den overordnede afgrænsning af målgruppen, som den fremgår af specialevejledningen og Sundhedsstyrelsens vejledning fra 1990. Desuden anbefales i rapporten

en løbende kritisk stillingtagen til eventuel indplacering af nye (store) grupper af patienter, herunder til alternative og fornyede organisatoriske overvejelser.

Interviewundersøgelsen klarlægger, at der i overensstemmelse med anbefalingerne i literaturstudiet og Sundhedsstyrelsens rapport i et lægefagligt perspektiv vurderes behov for national politisk-administrativ opmærksomhed på i et samarbejde med de lægefaglige miljøer at fastholde samt yderligere opdatere og præcisere den eksisterende beskrivelse og afgrænsning af målgruppen, særligt hvad angår formuleringen 'enkelte andre specielle nervesygdomme og lungelidelser'. Dette med henblik på dels at modvirke ureflekteret indikationsskred i patientgruppen, og dels sikre en større ensretning af henvisningspraksisen på tværs af respirationscentre. Det anerkendes dog blandt de interviewede læger at ville være udfordrende at præcisere den eksisterende beskrivelse, fordi der forekommer en gruppe af potentielle patienter, som er vanskelige præcist at afgrænse. Desuden vil præcisering vanskeliggøres af, at henvisning til respirationscentre beror på en multifaktoriel vurdering af patienten, jf. afsnit 7.5.2, hvorfor det uundgåeligt vil være svært at sætte henvisningskriterier entydigt på formel.

Hvad angår kriterier for igangsætning og tilrettelæggelse af respiratorbehandling viser organisationsanalysen, at der aktuelt ikke findes ensartede, nationale kriterier og retningslinjer herfor foruden gældende beskrivelse i Sundhedsstyrelsens rapport (6) og vejledning (1990). Og kun på RCV foreligger aktuelt lokale kriterier og retningslinjer for igangsætning og tilrettelæggelse af behandling. Desuden viser interviewundersøgelsen, at beslutning om igangsætning af behandling beror på en multifaktoriel og tværfaglig vurdering, og at der deraf kan forekomme mindre variationer på tværs af læger og respirationscentre i forhold til, hvornår og hvilke patienter som tilbydes HVM, samt hvordan behandling tilrettelægges. Interviewundersøgelsen klarlægger på den baggrund, at der kan være potentialer i at skærpe nationale kriterier for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af behandling, samt i at udvikle nationale retningslinjer herfor med afsæt i foreliggende lokale og internationale kriterier og retningslinjer.

Facilitering af beslutningstagen på henvisende afdelinger

Blandt de interviewede læger fra respirationscentre opleves udfordringer på de henvisende hospitalsafdelinger i forhold til henvisning af patienter til respirationscentre. Udfordringerne fremgår særligt at relatere sig til for tidlig henvisning af patienterne. Henvisningen opleves fx at ske før hensigtsmæssigheden af igangsætning af den respiratoriske behandling er vurderet, og patientens ønsker hertil er klarlagte. Desuden før patienterne er færdigudredte og færdigbehandlede og dermed stabile, som der stilles krav om i respirationscentrenes henvisningskriterier. Det understreges, at der ikke er tale om en generel problemstilling, men at udfordringerne optræder i forhold til en mindre gruppe af patienter, særligt blandt traumepatienter og patienter med akut opstået respirationsinsufficiens. Det vurderes af de adspurgte læger, at udfordringerne kan henføres til dels be-

grænset viden på henvisende afdelinger om det respiratoriske felt og centrenes henvisningskriterier, og dels ventetider og begrænset kapacitet på henvisende afdelinger, som vanskeliggør længerevarende indlæggelse af patienter til observation.

På den baggrund påpeges potentialer i at sikre og yderligere styrke dialogen med de henvisende afdelinger omkring de patienter, hvor der hersker tvivl, forud for visitation til respirationscentret. Dette skal ske med henblik på at kvalificere beslutning om henvisning og mindske henvisninger af endnu ikke stabile patienter. Interviewundersøgelsen viser, at der på respirationscentrene allerede er opmærksomhed på at tillære de henvisende afdelinger at konsultere respirationscentrets læger ved tvivlsspørgsmål. Denne funktion har siden ultimo 2013 på RCØ været formaliseret i form af en udgående læge til at varetage ugentlig rådgivning (telefonisk og/eller ved besøg) af læger på henvisende afdelinger med henblik på at sikre kvalificeret og rettidig henvisning til respirationscentret (jf. afsnit 7.5.2). Det vurderes af den regionale aktør i Region Sjælland samt den interviewede respiratoriske læge på RCØ, at den udgående læge har mindsket henvisning af uafklarede patienter og igangsætning af uhensigtsmæssige eller uønskede forløb. Aktuelt forefindes sådanne formaliserede ordninger ikke på RCV og RCS, og der foreligger ikke forskning i ordningens faktiske konsekvenser og effekter. På baggrund af vurderede positive erfaringer med ordningen på RCØ vurderes der dog at kunne være potentialer i etablering af lignende formaliserede ordninger på RCV og RCS.

Facilitering af igangsætning af meningsfulde og ønskede behandlingsforløb

Interviewundersøgelsen viser på tværs af de interviewede læger en understreget vigtighed i at sikre, at igangsætning af HMV baseres på en forudgående systematisk og grundig dialog og forventningsafstemning med patienterne, herunder også om palliative medicinske alternativer til respiratorbehandling. Dette for at sikre igangsætning af meningsfulde og ønskede respiratorforløb, samt ensretning mellem læger i forhold til dialogen med patienterne. Det pointeres, at kvalificering af beslutningstagen ikke nødvendigvis vil resultere i færre igangsatte forløb, men der vurderes potentielle positive effekter i forhold til at igangsætte patientforløb med færre udfordringer og frustrationer for patienter. Dermed også potentielle positive effekter i forhold til at skabe bedre arbejdsmiljø og mindre udskiftning i hjælperhold, færre akutte indlæggelser af patienter på intensivafdelinger og færre omkostninger forbundet med rekruttering og oplæring af nye hjælpere.

På RCV er der specifikt for ALS-patienter blevet bevilget finansiering fra Sundhedsstyrelsen til i et samarbejde mellem respirationscentret, neurologisk og intensiv afdeling at udvikle og implementere et beslutningsstøtteværktøj til at understøtte dialog om behandlingsmuligheder med patienter og deres pårørende (jf. afsnit 7.5.2). Dette med henblik på at bidrage til at kvalificere og systematisere beslutningstagen vedrørende igangsætning af respiratorbehandling; herunder systematisk klarlægge muligheder og konsekvenser ved respiratorisk behandling, tegne et realistisk billede af hverdagen som respiratorbruger med overvågning samt facilitere en ligeværdig drøftelse af respiratorisk og

palliativ medicinsk behandling. Der forefindes ikke lignende formaliserede beslutningsstøtteværktøjer på RCØ og RCS, ligesom de aktuelt ikke findes for andre patientgrupper. Den reelle effekt og konsekvenserne af implementeringen af et sådant beslutningsstøtteværktøj er endnu ukendte, og potentialerne i at udvikle og udvide beslutningsstøtteværktøjet til andre patientgrupper er derfor endnu ikke klare. Det understreges dog, at et sådant værktøj vanskeligt lader sig implementere for respiratoriske patienter, der akut indlægges på intensiv afdeling som konsekvens af traumer, akut opstået respirationsinsufficiens eller hurtigt progredierende sygdomsforløb.

7.6.2 Igangsætning af forløb

Tidlig inddragelse af hjemkommune

En udfordring i et kommunalt perspektiv er en oplevelse af ikke altid at modtage information om nye visiterede patienter tilstrækkeligt tidligt i etableringen af HMV-forløb. Sen modtagelse af information om nye patienter forsinker igangsætningen af den kommunale sagsbehandling vedrørende klargøring af hjemmet og udmåling af plejeopgaven efter serviceloven. Sagsbehandlingen kan være tidskrævende og kompliceret, og sen igangsætning heraf kan derfor forsinke udskrivning af patienterne fra intensivafdelingerne til eget hjem, eller øge brugen af midlertidige aflastningspladser og vikarbureauer afhængigt af den lokale regionale og kommunale organisering. I et kommunalt perspektiv påpeges derfor potentialer i fra regional og/eller respirationscentrets side at sikre tidligere kontakt til og inddragelse af patienternes hjemkommuner, gerne før endelig visitation til igangsætning af behandling. Dette vurderes at ville kunne facilitere en hurtigere sagsbehandling og derved en hurtigere udskrivning. Desuden anskues inddragelse af hjemkommunen før endelig visitation at kunne muliggøre en tidlig forventningsafstemning med patienter (og pårørende) i forhold til, hvad forskellige typer af hjælperordninger forudsætter og indebærer. Herved skabes der forudsætninger for at minimere igangsætningen af hjælperordninger, som på forhånd anslås at være udfordrende og dermed omkostningstunge.

Interviewundersøgelsen giver ikke grundlag for at præcisere, hvilke konkrete organisatoriske initiativer, der kan facilitere tidligere inddragelse af kommunerne. Udfordringer med (for) sen inddragelse af patientens hjemkommune genfindes i det systematiske litteraturstudie. Her anbefales, i overensstemmelse med interviewundersøgelsen, tidlig igangsætning af nye patientforløb med henblik på at sikre tilstrækkelig tid til planlægning af disse aktørers indsats og derved mindske risiko for igangsætning af problematiske forløb. Desuden og overensstemmende med interviewundersøgelsen med henblik på tidlig forventningsafstemning med patienten. Specifikke organisatoriske initiativer for facilitering af tidlig inddragelse af kommunale aktører forbliver også i litteraturstudiet begrænset italesat, dog fremhæves potentialer i mere generelt at optimere overgang til

eget hjem med tværfaglige teams med lokale som hospitalsforankrede aktører, der er ansvarlige for planlægning og koordinering af forløbet.

7.6.3 Etablerede forløb

Hjælperhold – kompetencer, rammer og regulering

I modsætning til ovenstående omhandler dette afsnit ikke visitation til og igangsætning af HMV men etablerede forløb. Fokus her rettes således mod at understøtte optimerede forløb for patienter i HMV med hjælperordning.

Interviewundersøgelsen viser, at patientforløb og hjælperordninger etableret i forbindelse med HMV overvejende er stabile og velfungerende. For en mindre andel af patientforløbene opleves hjælperordningerne dog at være forbundet med flere og betydelige udfordringer. Udfordringerne opleves særligt at forekomme i komplicerede patientforløb, fx blandt patienter med hurtigt progredierende forløb, patienter med kognitive og sociale udfordringer eller patienter med komplicerede forhold i hjemmet.

Udskiftning i hjælperhold fremføres på tværs af de interviewede aktører at være den væsentligste udfordring forbundet med etablerede hjælperordninger. Udskiftning blandt hjælpere forekommer naturligt af og til i alle hjælperordninger, men påpeges i særdeleshed at forekomme i de komplicerede patientforløb, hvor udskiftningsgraden i nogle tilfælde årligt kan være op mod 50 %. Udskiftning i hjælperhold er udfordrende, fordi det er forbundet med betydelige omkostninger, både i forhold til kontinuerlig oplæring af nye hjælpere, sagsbehandlingstid i såvel kommuner som regioner samt til midlertidige indlæggelser af patienterne på intensivafdelinger som konsekvens af ufuldstændige hjælperhold og vagtplaner. Udskiftning i hjælperhold har desuden betydelige negative konsekvenser for behandlingskvaliteten. Hyppig udskiftning i hjælperhold henføres i høj grad til udfordringer med hårdt psykisk og fysisk arbejdsmiljø. Det ligger imidlertid uden for denne organisationsanalyses rækkevidde at gå nærmere ind i hjælperudskiftningernes årsager, da de respiratoriske hjælpers perspektiver ikke er afdækket.

Interviewundersøgelsen viser foruden udskiftning i hjælperhold, at de oplevede udfordringer forbundet med hjælperordningerne relaterer sig til betydelige vanskeligheder med rekruttering af nye hjælpere samt kompetenceniveauet blandt de respiratoriske hjælpere, særligt i forhold til levering af plejeopgaver efter serviceloven. På baggrund af de forskellige udfordringer forbundet med hjælperordninger vurderes på tværs af de interviewede aktører et betydeligt behov for og potentialer i lokalt og på nationalt, politisk-administrativt niveau at skabe bedre rammer for og regulering af hjælperordningerne. Dette både i et økonomisk perspektiv og med henblik på at sikre behandlingskvaliteten. Der italesættes flere forslag til organisatoriske initiativer, der kan understøtte dette, herunder formalisering af oplæring og uddannelse i hjælp og pleje efter serviceloven, skær-

pelse af ansættelsesforhold for og organisatorisk og faglig forankring af hjælperhold samt udgående sygeplejersker til kvalitetssikring, opfølgning og konfliktløsning i hjemmet. Organisationsanalysen muliggør ikke at nuancere og præcisere disse organisatoriske initiativer og således angive konkrete organisatoriske løsningsmodeller til sikring af bedre rammer for og regulering af hjælperordningerne. Dette bør dog være et opmærksomhedspunkt for fremadrettet indsats.

Udfordringer forbundet med udskiftning i hjælperhold og rekruttering af nye hjælpere, særligt som konsekvens af dårligt psykisk og fysisk arbejdsmiljø, genfindes i de kvalitative studier af hjælperes erfaringer i det systematiske litteraturstudie. I disse studier peges som i interviewundersøgelsen på flere organisatoriske initiativer, der kan imødekomme udfordringerne. Det involverer adgang til sygepleje- og lægefaglig supervision i forbindelse med spørgsmål og problemstillinger i patienternes hjem. Desuden skærpelse og formalisering af ansvars- og opgavefordeling mellem patienter, pårørende og hjælpere vedrørende hjælp og plejeopgaver, fx gennem forventningsafstemning herom i forbindelse med opstart af forløb. Endelig fremhæves styrkelse af hjælperuddannelsen. I overensstemmelse med interviewundersøgelsen muliggør litteraturstudiet dog ikke at præcisere de organisatoriske initiativer, ligesom de forventede eller reelle konsekvenser og effekter ikke præciseres.

7.6.4 Perspektiverende områder i forhold til fremadrettet organisering

Perspektiverende skal fremhæves to organisatoriske initiativer, som på baggrund af organisationsanalysen anskues at have potentialer i forhold til fremadrettet organisering af HMV. Initiativerne eksisterer ikke på nuværende tidspunkt i en dansk kontekst og grundlaget for en umiddelbar implementering heraf heller ikke. Der er således tale om initiativer med et umiddelbart længere tidsperspektiv end de i det ovenfor klarlagte fem organisatoriske perspektiver. De to initiativer omhandler henholdsvis muligheden for anvendelse af botilbud og plejecentre som ramme for respiratorbehandling og anvendelsen af telemedicin i monitorering af patienterne.

Brug af botilbud og plejecentre i særligt komplicerede forløb

Organisationsanalysen viser, at der på tværs af kommuner, respirationscentre og regioner efterspørges mulighed for i lovgivningen i højere grad at kunne gøre brug af eksisterende botilbud og plejecentre som ramme for HMV. Muligheden efterspørges ikke for respiratorpatienter generelt, men specifikt for særligt komplicerede patienter, som af forskellige årsager enten ved henvisning til respiratorbehandling vurderes ikke-egnede til hjemmerespiratorbehandling eller som efter etablering af HMV vurderes uegnede hertil. Potentialerne i brugen af botilbud og plejecentre henføres til øget behandlingskvalitet for patientgruppen. Desuden ses potentialer i forhold til at imødekomme udfordringer med hårdt psykisk og fysisk arbejdsmiljø i patienternes hjem. Dette vurderes at ville kunne bidrage til mindskelse af sygefravær og udskiftning i hjælperhold og derved mindskelse af

omkostninger forbundet med akutte indlæggelser på intensiv afdeling samt til rekruttering og oplæring af nye hjælpere. Etablering af muligheden for anvendelse af botilbud og plejecentre som organisatorisk ramme for HVM genfindes i litteraturstudiet som et organisatorisk initiativ, der ønskes at kunne bidrage til at imødekomme udfordringer med problematisk psykisk arbejdsmiljø i nogle patienters hjem. Den nærmere tilrettelæggelse og brug af respiratorbehandling på plejecentre og botilbud udfoldes ikke i hverken interviewundersøgelsen eller litteraturstudiet. Det understreges dog, at tilrettelæggelsen og brugen bør målrettes specifikke patientgrupper fx i forhold til alder og diagnoser. Desuden rettes opmærksomhed på, at anvendelse af botilbud og plejecentre ikke nødvendigvis modsvarer patienters og pårørendes ønsker og behov (jf. kapitel 5).

Anvendelse af telemedicin i monitorering

Organisationsanalysen viser, at der på tværs af de interviewede aktører vurderes umiddelbare potentialer i anvendelsen af telemedicinske løsninger til supervision af hjælpere samt kvalitetssikring af den respiratoriske behandling i patienternes hjem. Anvendelse af digitalt understøttet videoudstyr med krypteret, sikker forbindelse forestilles således at kunne muliggøre en understøttelse af kommunikationen mellem respirationscentret og hjælpere og/eller patienten i hjemmet. Derved skabes bedre mulighed for lægefaglig kvalitetssikring og monitorering af behandlingen samt håndtering af akutte tvivlsspørgsmål og problemstillinger på afstand. Dette vurderes at kunne bidrage til at mindske akutte indlæggelser på intensiv afdeling og konsultationer på respirationscentrene samt skabe en større tryghed for hjælpere og patienter. Interviewundersøgelsen giver ikke grundlag for nærmere præcisering af de telemedicinske løsninger samt disses effekter og konsekvenser.

Eventuelle potentialer ved anvendelse af telemedicin til kommunikation med patienter og deres hjælpere i hjemmet påpegedes også i Sundhedsstyrelsens rapport (6) ligesom det understøttes af det systematiske litteraturstudie. Heri fremhæves potentialer i form af dels forbedrede muligheder for kvalitetssikring af respiratorbehandling i eget hjem, dels informationsudveksling mellem patienter, pårørende og respiratoriske hjælpere i hjemmet og læger fra respirationscentret. Et enkelt studie påviser desuden positiv effekt af telemedicinsk monitorering i forhold til forebyggelse af indlæggelse, risikoen for akut forværring af patientens tilstand i hjemmet samt omfanget af ugentlige henvendelser til praktiserende læge eller hospitalet. Litteraturstudiet understreger dog samtidig, at vurdering af den egentlige værdi og funktion af telemonitorering bør bero på en samlet betragtning af behandlingstilbud til patientgruppen, ligesom telemonitorering bør indtænkes som del af en samlet behandlingsstrategi. Endelig efterspørges i litteraturen yderligere fremadrettet forskning i effekten af telemedicinsk monitorering samt viden om omkostningseffektiviteten af telemedicinsk monitorering.

7.7 Kapitelsammenfatning

Formålet med den organisatoriske analyse var at klarlægge organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV i Danmark, herunder også internationale erfaringer hermed. Desuden var det analysens formål at undersøge udfordringer og muligheder i den aktuelle organisering samt organisatoriske perspektiver på fremadrettet organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV. Analysen kombinerer et systematisk litteraturstudie af internationale studier og evidensbaserede retningslinjer samt en kvalitativ interviewundersøgelse bestående af telefoninterview og fokusgruppeinterview med læger fra de tre respirationscentre samt repræsentanter fra de fem regioner og 10 udvalgte kommuner.

Internationale erfaringer med visitation til og organisering af respiratorbehandling i eget hjem

Gennemgang af internationale, evidensbaserede retningslinjer viser en høj grad af overensstemmelse mellem anbefalingerne for igangsætning af HMV på tværs af lande. Fx er der bred enighed om, at NIV bør være førstelinjebehandling frem for invasiv behandling på tværs af diagnoser. Inden for diagnostikken er det værd at bemærke, at man i de angelsaksiske lande i højere grad har fokus på blodets iltmætning, hvorimod man i blandt andet skandinavisk, tysk og hollandsk tradition i højere grad inddrager blodets indhold af CO₂, især under søvn, som mål for, hvor nødlidende patientens vejtrækning er. Det kan i nogle tilfælde medføre forskelligt beslutningsgrundlag for tilbud om HMV, og det betyder også, at kliniske retningslinjer ikke altid automatisk kan overføres fra et land til et andet. Med hensyn til behandling antydes en tendens til særligt i de angelsaksiske lande at vælge behandling med NIV frem for også at tilbyde invasiv behandling.

De inkluderede organisatoriske studier forholder sig ikke til organiseringen af det samlede forløb, som nærværende kapitel søger at belyse, men præsenterer specifikke nedslagspunkter i organiseringen af HMV. Litteraturstudiet viser, at visitation til og organisering af HMV internationalt kendetegnes ved betydelig både lokal og national variation, og der påpeges en hensigtsmæssighed i at tydeliggøre og yderligere udvikle klare kriterier og retningslinjer for visitation og behandling. Overgangen fra hospital til hjemmet i forbindelse med igangsætning af HMV fremhæves at være kompliceret, og flere studier understreger væsentligheden i gennem organisatoriske initiativer at understøtte omhyggelig og tidlig planlægning af overgangen. Litteraturstudiet indikerer endvidere, at der kan være potentialer i anvendelsen af telemedicinsk monitorering af hjemmerespiratorpatienter, men det understreges, at telemonitorering bør indtænkes som del af en samlet behandlingsstrategi, ligesom fremadrettet forskning efterspørges i effekten og omkostningseffektiviteten af telemedicinsk monitorering. Flere inkluderede studier understreger væsentligheden i at sikre tilstrækkelig indledningsvis og kontinuerligt opfølgende uddannelse og oplæring af respiratoriske hjælpere og fremhæver vigtigheden i individualiseret oplæring i patientens hjem. Endelig viser litteraturstudiet, at hjælpere til respiratorpa-

tienter oplever væsentlige udfordringer med grænsesætning over for og ansvarsfordeling i forhold til patient og pårørende med konsekvenser for det oplevede psykiske arbejdsmiljø. Dette vurderes at være en væsentlig årsag til udskiftning i hjælperhold, og der efterspørges organisatoriske initiativer, der kan imødekomme sådanne udfordringer.

Organisering af HVM i dansk sammenhæng

HVM er en fortsættelse af den højt specialiserede sygehusbehandling og varetages af landets tre respirationscentre i et samarbejde med regionerne og patienternes hjemkommuner. Planlægning og håndtering af HVM varetages fortrinsvis inden for de enkelte regioner. Organisering af HVM reguleres af flere samtidigt gældende formelle politisk-administrative og lovgivningsmæssige rammer, herunder specialevejledningen for anæstesiologi, sundhedsloven, serviceloven samt nyligt udarbejdede lovpligtige samarbejdsaftaler for fælles hjælperordninger mellem region og regionens kommuner.

Patienter henvises fortrinsvis fra intensivafdelinger, neurologiske afdelinger, børneafdelinger samt lungemedicinske afdelinger, som typisk varetager diagnostik og behandling af den bagvedliggende sygdom. Patientgruppen, der kandiderer til HVM, beskrives i Sundhedsstyrelsens Vejledning af 1990, men lader sig vanskeligt afgrænse præcist. Henvisning til respirationscentrene med henblik på vurdering og eventuel igangsætning af HVM sker på baggrund af beskrivelsen af målgruppen samt på baggrund af lokalt specificerede objektive henvisningskriterier og krav til henvisning. I forbindelse med størstedelen af patienterne opleves ikke tvivl om henvisning, dog kan forekomme tvivl i forhold til en mindre gruppe af patienter, særligt blandt traumepatienter og patienter med akut opstået respirationsinsufficiens.

Igangsætning af HVM er en lægefaglig beslutning baseret på en forudgående tværfaglig vurdering. Grundlaget for beslutning om igangsætning er i høj grad multifaktorielt, og udgøres af en kombination af foreliggende kriterier for igangsætning af behandling, undersøgelses- og målingsresultater samt samtale med patienten og eventuelt dennes pårørende. Der foreligger ikke aktuelt formaliserede, nationale kriterier og retningslinjer for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HVM, dog understøttes beslutningstagen om igangsætning af HVM for patienter med ALS og Duchennes muskeldystrofi på RCV af lokalt udarbejdede forløbsbeskrivelser. Internationale visitationskriterier og retningslinjer indgår som del af den lægefaglige viden og desuden som referenceramme for RCV's forløbsbeskrivelser. Patienternes kompleksitet og det multifaktorielle beslutningsgrundlag bevirker, at der kan forekomme mindre variationer læger i mellem i forhold til om og hvornår behandling sættes i gang. Dog fremstår der at være enighed om størstedelen af patientgruppen. Fastlæggelse af behandlingsbehovet, herunder typen af respiratorisk behandling og indikation for hjælperhold, foretages af respirationscentrene. Udmåling af pleje efter servicelovens bestemmelser, herunder beslutning om typen af hjælperordning, foretages af patientens hjemkommune. Organisationsanalysen viser mindre variation i

proces for etablering af hjælperordninger på respirationscentrene. Desuden betydelig såvel regional som kommunal variation i præferencer og praksis vedrørende organisering af hjælperordningerne, særligt i forhold til hvilke paragraffer i serviceloven hjælperordningerne fastlægges efter, samt hvordan hjælperordningerne forankres.

Ansvar for uddannelse og certificering af de respiratoriske hjælpere i respiratorisk overvågning påhviler respirationscentrene. Der foreligger ingen nationale retningslinjer for uddannelse og oplæring i respiratorisk overvågning. På alle respirationscentre anvendes dog standardiserede, lokalt udarbejdede og i høj grad overensstemmende retningslinjer med henblik på at sikre struktureret og ensartet oplæring. Sikring af hjælpernes kvalifikationer i hjælp og pleje efter serviceloven påhviler kommunerne. Oplæringen er ikke formaliseret, og den specifikke udformning og varetagelsen heraf varierer på tværs af respiratoriske ordninger og kommuner.

Organisationsanalysen viser, at opfølgning, kvalitetssikring og monitorering af HVM er et delt ansvar mellem respirationscentrene/regionerne og kommunerne. Tilsynspligten med og det sundhedsfaglige ansvar for opfølgning, kvalitetssikring og monitorering af HVM påhviler respirationscentrenes læger. Der foreligger ikke nationale standarder og kliniske retningslinjer for kvalitetssikring og monitorering, men dette er implementeret og varetages på de enkelte respirationscentre rutinemæssigt gennem forskellige, og i høj grad overensstemmende, organisatoriske initiativer og praksisser. Tilsynspligten med hjælp og pleje efter serviceloven påhviler kommunerne i samarbejde med den givne arbejdsgiver. Der foreligger ikke nationale standarder og retningslinjer, og organisationsanalysen viser, at der forekommer stor variation i, i hvor høj grad og på hvilken måde kvalitetssikring og monitorering af plejen varetages. Interviewundersøgelsen klarlægger desuden, at udvikling og vedligeholdelse af systematisk dokumentation, forskning og udvikling med henblik på at etablere og sikre et validt grundlag for fremtidige beslutninger samt systematisk kvalitetssikring og overvågning af HVM i overensstemmelse med konklusioner i Sundhedsstyrelsens rapport (2012) fortsat er vigtigt at have opmærksomhed på, såvel på respirationscentrene som i regionerne.

Endelig viser organisationsanalysen, at samarbejdet mellem respirationscenter, region og kommuner i forhold til HVM generelt opleves velfungerende. En central årsag til dette vurderes på tværs af de adspurgte aktører at være placering af opgavevaretagelsen og ansvaret for patientgruppen hos få medarbejdere, såvel i kommunerne som i regionerne. De netop etablerede samarbejdsaftaler mellem kommuner og region forventes at ville bidrage til yderligere at styrke samarbejdet region og kommuner imellem. På tværs af de tre respirationscentre forekommer et velfungerende samarbejde og regelmæssige formaliserede møder med henblik på koordinering og ensretning, blandt andet i forhold til henvisningspraksis, behandlingsprincipper, uddannelse af hjælperhold samt opgørelser

og rapportering af ventelister og aktivitet. Tværgående samarbejde og sparring regioner og kommuner imellem er begrænset.

Oplevede organisatoriske udfordringer og perspektiver på fremadrettet visitationspraksis og organisering

Organisationsanalysen giver ikke grundlag for at anbefale en bestemt organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HVM fremadrettet. Med henblik på at imødekomme eksisterende organisatoriske udfordringer samt skabe ensartede kriterier for visitation og optimerede forløb med høj kvalitet i behandling er det dog muligt på baggrund af organisationsanalysen at pege på fem områder med potentiale i forhold til fremadrettet visitationspraksis og organisering.

1. Der anskues i et lægefagligt perspektiv behov for politisk-administrativ opmærksomhed på i et samarbejde med de lægefaglige miljøer at opdatere og præcisere den eksisterende beskrivelse og afgrænsning af målgruppen for HVM. Dette med henblik på dels at modvirke, at der langsomt sker et indikationsskred i patientgruppen, uden man eksplicit har taget stilling til om indikationsskredet er hensigtsmæssigt, og dels sikre en større ensretning af praksis for henvisning til og igangsætning af respiratorisk behandling på tværs af henvisende afdelinger og respirationscentre. Desuden fremhæves, at der kan være potentialer i i højere grad at skærpe eksisterende nationale kriterier for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af behandling samt i at udvikle nationale retningslinjer herfor med afsæt i foreliggende lokale og internationale kriterier og retningslinjer. Det er dog væsentligt at være opmærksom på patientgruppens kompleksitet samt den multifaktorielle baggrund for vurderingen af patienten, og dermed mulige udfordringer i at præcisere beskrivelsen af målgruppen samt sætte kriterier for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af behandling entydigt på formel.
2. Organisationsanalysen viser potentialer i på respirationscentrene at sikre, og yderligere styrke dialogen med henvisende hospitalsafdelinger omkring patienter, hvor der hersker tvivl om patientens egnethed og/eller parathed i forhold til respirationscentrenes henvisningskriterier forud for visitation til respirationscentret. Dette med henblik på at kvalificere beslutningstagen vedrørende henvisning og mindske (for tidlig) henvisning af endnu ikke stabile patienter. På baggrund af vurderede positive erfaringer med etableret ordning på RCØ med udgående læge til varetagelse af rådgivning af læger på henvisende afdelinger vurderes der at kunne være potentialer i undersøgelse af hensigtsmæssigheden i etablering af lignende organisatoriske initiativer på RCV og RCS.
3. Med henblik på at sikre igangsætning af meningsfulde og ønskede respiratorforløb samt ensretning mellem læger i forhold til dialog med patienterne om igangsætning af HVM understreges en vigtighed i organisatorisk opmærksomhed på, at igangsætning af HVM baseres på en forudgående systematisk og grundig dialog og forvent-

ningsafstemning med patienterne, herunder også om palliative medicinske alternativer til respiratorbehandling. Kvalificering af beslutningstagen resulterer ikke nødvendigvis i færre igangsatte forløb, men vurderes at have positive effekter i forhold til at sikre igangsætning af patientforløb med færre udfordringer og frustrationer for patienter og hjælperhold. Et beslutningsstøtteværktøj til understøttelse af dialog om HMV for ALS-patienter er aktuelt under udvikling og implementering på RCV. Effekten ved og konsekvenserne af beslutningsstøtteværktøjet er dog endnu ukendte, og potentialerne i at udvikle og udvide beslutningsstøtteværktøjet til andre patientgrupper og de øvrige respirationscentre er derfor endnu ikke klare.

4. Organisationsanalysen indikerer potentialer i fra regional og/eller respirationscentrets side at sikre tidligere kontakt til og inddragelse af patienternes hjemkommuner, gerne før endelig beslutning om igangsætning af HMV. Dette vurderes at ville kunne facilitere hurtigere udmåling af pleje efter serviceloven og forberedelse af patientens hjem og derved kunne imødekomme aktuelle udfordringer med sen udskrivning fra intensivafdelingerne til eget hjem samt mindske brugen af midlertidige aflastningspladser og vikarbureauer. Desuden muliggør tidlig inddragelse af hjemkommunen en tidlig forventningsafstemning med patienter om krav og forudsætninger ved hjælperordninger. Dette vurderes at kunne mindske igangsætningen af hjælperordninger, som på forhånd anslås at være udfordrende og dermed omkostningstunge.
5. Med henblik på at understøtte optimerede forløb for patienter i HMV samt imødekomme aktuelle betydelige udfordringer forbundet med hjælperordninger i forhold til udskiftning i hjælperhold, rekrutteringsvanskeligheder, kompetenceniveau i forhold til levering af plejeopgaver efter serviceloven samt kvalitetssikring af denne, vurderes et betydeligt behov for og potentialer i lokalt og på nationalt, politisk-administrativt niveau at skabe bedre rammer for og regulering af hjælperordningerne. Dette både i et økonomisk perspektiv og med henblik på at sikre behandlingskvaliteten.

Perspektiverende giver organisationsanalysen endelig anledning til at fremhæve to organisatoriske initiativer, som kan have potentialer i forhold til fremadrettet organisering af HMV. Det drejer sig om dels muligheden for anvendelse af botilbud og plejecentre som ramme for respiratorbehandling, og dels anvendelsen af telemedicin i monitorering af patienterne. Initiativerne eksisterer ikke på nuværende tidspunkt i en dansk kontekst og grundlaget for en umiddelbar implementering heraf heller ikke. Der er således tale om initiativer med et umiddelbart længere tidsperspektiv end de øvrige fem organisatoriske områder.

7.8 Diskussion af metode og resultater

Organisationsanalysens konklusioner bidrager til vores viden om organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af respiratorbehandling i eget hjem i dansk sammenhæng og internationalt. Konsekvenserne af organiseringsmåder og visitationspraksis er i mindre grad belyst. Med sit komparative perspektiv giver analysen indsigt i forskelle

og ligheder på tværs af respirationscentre, regioner og kommuner og dermed i den kompleksitet og variation, der kendetegner visitation til og organisering af HMV i en dansk sammenhæng.

Der kan imidlertid også påpeges nogle metodiske udfordringer, som kan være hensigtsmæssige at tage højde for i fremtidige studier. For det første er såvel litteraturstudiet som interviewundersøgelsen primært deskriptiv. Det giver indsigt i, hvordan HMV er og kan organiseres, men kun i begrænset omfang vurderes konsekvenserne ved og effekterne af forskellige organiseringsmåder. Der kan derfor med fordel indhentes yderligere viden om, hvordan visitationspraksis for og organisering af HMV tilrettelægges mest hensigtsmæssigt. En sådan viden forudsætter en mere systematisk kobling af organiseringsmåder og effekter, fx for økonomi og kvalitet i behandling. I forlængelse heraf skal for det andet rettes opmærksomhed mod de perspektiver på konsekvenser ved organisering, som indgår i organisationsanalysen. Disse perspektiver baseres på interviewpersoners udsagn om oplevede konsekvenser og konklusioner fra kvalitative studier. For det tredje betyder valget om at udvælge 'best cases' blandt kommuner frem for at inddrage alle, at analysen ikke giver et fuldstændigt og dækkende billede af organiseringen af respiratorbehandling i eget hjem i Danmark. For det fjerde skal den geografiske kontekst for de internationale kliniske retningslinjer og studier tages i betragtning i forhold til overførbareheden af disses resultater og anbefalinger til en dansk kontekst. Dette da sundheds- og socialvæsenet på tværs af nationale kontekster i forskellig grad adskiller sig såvel i forhold til de forvaltningsmæssige rammer som organisatorisk og styringsmæssigt. Dette gælder således også for HMV. Mange af litteraturstudiets konklusioner og anbefalinger genfindes imidlertid i organisationsanalysens interviewundersøgelse, hvilket understøtter validiteten af litteraturstudiets konklusioner. Endelig for det femte er der ikke blevet foretaget interview med hjælpere til respiratorbrugerne, og deres perspektiver indgår således ikke i den organisatoriske analyse. Det har som konsekvens, at det ikke har været muligt fra hjælpernes perspektiv at belyse og udfolde de identificerede væsentlige udfordringer forbundet med organiseringen af hjælperordningerne, herunder dårligt psykisk arbejdsmiljø, store udskiftninger i hjælperhold og rekrutteringsvanskeligheder.

På trods af de fremhævede forbehold udgør organisationsanalysen et betydeligt bidrag til en systematisk kortlægning af, hvordan organisering af visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af respiratorbehandling i eget hjem er tilrettelagt i dansk sammenhæng. Desuden et første skridt på vejen i forhold til at blive klogere på eksisterende organisatoriske udfordringer samt områder med potentiale i forhold til fremadrettet visitationspraksis og organisering med henblik på i højere grad at skabe klarhed om og ensartning i kriterier for visitation og optimerede forløb med høj kvalitet i behandling.

8 Økonomi

Hovedkonklusioner

- Der er gennemført en undersøgelse af omkostningerne ved HVM fra primært et regionalt perspektiv inden for fem patientkategorier: ALS, andet muskelsvind, para-/tetraplegi, erhvervet hjerneskade og andet.
- I 2015 og 2016 var der henholdsvis 824 og 832 HVM-patienter på landsplan mod 664 HVM-patienter i 2012. Respiratorbehandlingen kostede per år henholdsvis 1,26 og 1,32 mia. kr., svarende til en vækst på ca. 4 % fra 2015 til 2016. I gennemsnit kostede respiratorbehandlingen per patient 1,5 mio. kr. i 2016.
- Der er sket en stigning i både prævalens og incidens af HVM-patienter. Stigningen var dog begrænset i den sidste del af perioden 2012-2016 til 1 % fra 2015-2016. Der kan fra 2015 og 2016 observeres en stigning i de totale omkostninger på ca. 46 mio. kr. (indekseret med prisåret 2016).
- Patienter med anden muskelsvind end ALS er den største diagnosegruppe som brugere af HVM efterfulgt af ALS og para-/tetraplegi.
- Sammenlignet med indlæggelse på en intensivafdeling er HVM et økonomisk bedre alternativ.
- Det har ikke været muligt at kvantificere effekten af tre konkrete forslag til organisatoriske ændringer i organisationsafsnittet vedrørende udgående læge, beslutningsstøtteværktøj og tidlig inddragelse af hjemkommune, og dermed har en beregning af de økonomiske effekter ikke været mulig.
- Der mangler fortsat mere viden og forskning på området, og der er et stort behov for mere transparent og ensrettet monitorering af området samt dataopgørelser, blandt andet for at styrke sammenligningsgrundlaget nationalt og internationalt. Det har ikke været muligt at basere den økonomiske analyse på registerdata grundet tidsrammen for projektet.

8.1 Indledning

Respiratorbehandling i patientens eget hjem har åbnet for nye muligheder, så patienter med respirationsinsufficiens kan leve deres liv uden for hospitalsregi. De senere år er patientgruppen til respiratorbehandling i eget hjem vokset. Nogle af årsagerne tilskrives bedre behandling, hvor flere overlever længere trods deres sygdom eller handicap, og at flere patienter bliver henvist til respiratorisk behandling. Respiratorisk behandling i eget hjem er en fortsættelse af den højtspecialiserede sygehusbehandling, nu blot i patientens eget hjem (6).

8.2 Formål

Formålet med økonomikapitlet er dels at beskrive omkostningerne ved respiratorbehandling i eget hjem, dels at vurdere de sundhedsøkonomiske forhold ved en ændret organisering af behandlingsforløbene, jf. organisationskapitlet. Der er opstillet to overordnede analysespørgsmål:

1. Hvad er de samlede omkostninger i den danske sundhedssektor i forbindelse med respiratorbehandling i eget hjem?

2. Hvordan vil en organisatorisk ændring eller nye tiltag påvirke omkostningerne ved respiratorbehandling i eget hjem?

8.3 Metode

I dette afsnit beskrives den todelte metodiske fremgangsmåde inden for det økonomiske domæne. Del 1 beskriver litteraturstudiet, og i del 2 beskrives data indsamlet fra de tre respirationscentre (RCV, RCS og RCØ) der beskæftiger sig med og behandler patienter med respiratoriske problemstillinger i Danmark.

8.3.1 Litteraturstudiet

Studierne til litteraturstudiet blev identificeret gennem en systematisk litteratursøgning. Søgning, udvælgelse og gennemgang er beskrevet i afsnit 2.6 og 2.7 samt bilag 1. Litteraturen på området relateret til det økonomiske domæne er meget sparsom. En systematisk bloksøgning som kombinerer blok 1. (intervention) og blok 2. (economy) (se søgning 2, bilag 1) gav intet resultat. Af denne grund er der udelukkende udvalgt litteratur til det økonomiske domæne på baggrund af en overordnet bloksøgning på blok 1. (intervention). Heraf fremkom der 283 studier, hvoraf ni studier relateret til det økonomiske domæne blev udvalgt (15,27,69-74). Abstractet af Hazenberg et al. 2014, omhandlende telemonitorering, er efterfølgende blevet ekskluderet, da det er forlæg for den senere artikel (75).

De i alt otte studier blev udvalgt til at danne baggrund for det økonomiske domæne. En efterfølgende gennemgang af studierne resulterede i udvælgelse af fire studier til inklusion i litteraturstudiet (15,27,69,76). De fire studier er udvalgt, da de inkluderer en økonomisk analyse samt udregning af omkostninger ved respiratorbehandling i eget hjem. De resterende studier blev ekskluderet, da de ikke indeholdt estimerede omkostninger, og ligeledes vurderedes generaliserbarheden til en dansk kontekst overordnet at være lav (74,77,78).

Storbritannien, Holland og Tyskland, hvorfra tre studier er inkluderet (27,69,76), har overvejende sundhedssystemer, som minder meget om det danske. Til trods for de relativt store forskelle i måden at finansiere sundhedssektoren på i USA er studiet af Graf et al. alligevel inkluderet i nærværende litteraturstudie, da det opstiller omkostninger for en relativt stor gruppe af pædiatriske patienter (69). Respirationsområdet er ikke desto mindre et komplekst område, hvorfor finansiering og forskellige love og rettigheder på tværs af landegrænser kan være forskellige og derfor svært sammenlignelige. Ligeledes skal det påpeges, at patientgruppen er lille og heterogen. Studiedesign og inkluderede patientgrupper i studierne var derfor begrænset sammenlignelige. Dog gav studierne indsigt i forholdene for patienter med respirationsinsufficiens, og herunder hvor store samfundsmæssige omkostninger der er forbundet med området.

8.3.2 Indsamling af danske data

Indsamlingen af danske data er primært foregået gennem kontaktpersoner i de tre respirationscentre i Danmark (Vest, Syd og Øst) samt økonomimedarbejdere i regionerne. Data er baseret på årsopgørelser og notater fra de forskellige regioner, økonominotater og to anonymiserede datasæt fra årene 2015 og 2016 fra Region Syddanmark. Data er behandlet i det statistiske værktøj, Stata. Der er tilsendt rapporter fra RCV, hvor data er trukket ud på tværs (79-86).

Indsamlingen af data har været begrænset af, hvad der juridisk har været muligt, idet den økonomiske analyse ikke har kunnet betegnes som forsknings- eller forbedringsarbejde. Dette har medført, at vi ikke har kunnet fremskaffe data på individniveau, men kun på gruppeniveau. Dette har været et grundvilkår for økonomikapitlet og har dermed også sat begrænsninger for detaljeringsgraden af resultaterne. Der er forsøgt at fremskaffe data fra de tre respirationscentre i Danmark, hvad angår antallet af patienter per år (inkl. nye, døde og ophørte), fordeling på diagnosegrupper og antallet af henvisninger til centrene og heraf nye igangsatte forløb. Ligeledes er det forsøgt at få data om de medregnede omkostningskomponenter, årlig omkostning per patient og totale omkostninger ved HMV. Da omkostningerne for respiratorbehandling gøres op fra både en kommunal og en regional kasse, er det forsøgt at indsamle data fra begge instanser. Det var muligt at indsamle regionale data, og analysen anvender derfor overvejende et regionalt perspektiv.

Patienter med respiratorisk insufficiens er en lille og heterogen gruppe. Gruppen er ind delt i følgende overordnede diagnosegrupper: ALS, anden form for muskelsvind (herefter muskelsvind), para-/tetraplegi, erhvervet hjerneskade (herefter hjerneskade) og "andet"-gruppen. Gruppen bestående af "andet" inkluderer blandt andet børnesager og meget sjældne sygdomme. På grund af datamæssige begrænsninger og generaliserbarheden var det ikke muligt på nuværende tidspunkt at lave en separat analyse for omkostninger ved voksen- og børnesager. Denne vinkling kunne imidlertid være interessant, da der kan iagttages en markant budgetmæssig forskel på børnesager versus voksensager, hvor børnesagerne er de dyreste (83). Dette er opstillet i tabel 8.5, som skitserer antallet af voksen- og børneordninger for 2015 og 2016.

8.3.3 Omkostningsperspektiv

Omkostningerne ved respiratorbehandling er opgjort på samfunds niveau og vil derfor både inkludere omkostninger på regionalt og kommunalt niveau, i det omfang det er muligt. Omkostninger defineres som værdien af ressourceforbrug på respirationscentret samt den kommunale refusion, udelukkende til respiratorbehandling. Alle omkostninger rapporteres i danske kroner (DKK).

8.4 Resultater

Først præsenteres resultaterne fra litteraturstudiet, og herefter præsenteres resultaterne i forhold til danske data. Afslutningsvis medtager resultatafsnittet input fra organisationskapitlet, hvor de økonomiske konsekvenser af nye mulige organisationsformer undersøges og beskrives.

8.4.1 Litteraturstudiet

Der er rapporteret enkelte originale studier af omkostningerne forbundet med respiratorbehandling i eget hjem (15,27,69,76). Et enkelt engelsk studie, hvor man fokuserer på respiratorbehandling af 35 børn og unge (< 18 år), finder, at den gennemsnitlige pris for et barn/ung voksen er 2,7 mio. kr. per år (2006-priser) (76). I studiet er opstillet en række modeller, hvor de totale omkostninger i et år ved forskellige behandlingsscenarier sammenlignes. Den dyreste model var intensivafdeling med en gennemsnitlig pris på 8 mio. kr. per år, mens den ultimativt billigste model var pleje i eget hjem med forældre som ulønnede plejere til 0,5 mio. kr. (76). Omkostningerne falder, når det er muligt at sænke det faglige niveau for personalet, som varetager plejen og den respiratoriske behandling. Noyes et al. har ingen refleksion over det samfundsmæssige tab, der kan være ved at lade forældrene passe deres barn eller i forhold til livskvaliteten, da studiet er et rent omkostningsstudie.

Et hollandsk RCT-studie af Hazenberg et al. fra 2014 finder, at igangsætningen af respiratorbehandling for voksne patienter med neuromuskulære og thorakale lidelser med fordel kan begyndes i patienternes eget hjem ved brug af telemonitorering faciliteret af en udgående sygeplejerske (27). Studiet har estimeret en engangsbesparelse på 30.312 kr. per patient, som starter respiratorisk behandling i eget hjem versus behandling på hospitals afsnit.

I et amerikansk studie af Graf et al. fra 2007 estimeres hospitalets totale median omkostninger per patient, opgjort for 70 pædiatriske patienter som skal have anlagt en ny trakeostomi, til at være \$136.718 per patient om året (≈ 641.823 DKK), dog med en spredning i omkostningerne på \$36.237 - \$913.934 ($\approx 170.115 - 4.290.463$ DKK) udregnet efter prisniveauet i 2008 (69). Ifølge Graf et al. kan årsagen til den relativt store spredning eller variation i omkostningerne delvis skyldes forskelle i længden af hospitalsopholdet, de generelle priser og finansieringssystemet i USA samt den kirurgiske eller operative timing for anlæggelse af trakeostomi (69).

I en tysk medicinsk teknologivurdering af respiratorbehandling i eget hjem, hvor patientgruppen var afgrænset til neuromuskulære lidelser, fandt man via en systematisk litteratursøgning, at respiratorbehandling i hjemmet er et mere omkostningseffektivt alternativ sammenlignet med indlæggelse på en intensivafdeling (15). Ligeledes finder de, at om-

kostningerne til respiratorisk behandling i eget hjem stiger markant i takt med anvendelsen af højere faglighed og med stigende overvågningsintensitet.

Sammenfatning på litteraturstudiet

Gennemgående er evidensgrundlaget til belysning af omkostningerne ved anvendelse af respiratorbehandling i eget hjem begrænset, primært som følge af svage studiedesigns. Resultaterne i de inkluderede studier er varierende, og ligeledes er overføringsværdien til en dansk kontekst tvivlsom på grund af forskellige økonomiske og strukturelle præmisser internationalt.

Litteraturen, der er præsenteret i nærværende afsnit, peger i retning af, at respiratorbehandling i eget hjem overvejende er omkostningsbesparende, og ikke påvirker patientens helbredsrelaterede livskvalitet i en negativ retning. Dog må der tages forbehold for, om flytning af opgaver til hjemmet medfører ekstra arbejde for ansatte hjælpere eller pårørende, da dette ikke er belyst. Ligeledes undersøger to studier den initiale fase af respiratorbehandling, hvor det forsøges at afkorte indlæggelsestiden på hospitalets intensivafsnit, da denne fase har store omkostninger. Resultaterne har begrænset overførbarhed til en dansk kontekst.

8.4.2 Omkostninger ved HMV i Danmark

Incidens og prævalens

Tabel 8.1 viser en oversigt over antallet af patienter i respiratorisk behandling med overvågning i en femårig periode i de forskellige regioner. Der er opgjort efter henholdsvis brutto- og nettoantallet af patienter, nytilkomne, ophørte samt døde. Brutto er det antal patienter, som respirationscentret har i løbet af året og inkluderer både nye, døde og ophørte patienter. Nettoantallet er antallet af aktive patienter ved årets udgang, hvor døde og ophørte er fratrasket. Nye er antallet af patienter som er påbegyndt behandling i det pågældende år. Ophørte er det antal patienter, som har valgt at stoppe deres respiratoriske behandling. Døde er antallet af registrerede døde HMV-patienter, som har været i respiratorisk behandling i det pågældende år.

Tabel 8.1. Antallet af patienter i respiratorisk behandling fordelt efter region

Region Midtjylland					
År	Brutto*	Netto†	Nye	Ophørte	Døde
2012	159	140	34	8	11
2013	175	160	33	3	12
2014	193	160	33	13	20
2015	201	166	41	12	23
2016	205	191	39	11	3
Region Hovedstaden					
År	Brutto*	Netto†	Nye	Ophørte	Døde
2012	213	192	39	8	13
2013	249	212	57	15	22
2014	251	216	40	10	25
2015	250	217	34	14	19
2016	236	202	19	12	22
Region Syddanmark					
År	Brutto*	Netto†	Nye	Ophørte/ døde	
2012	124	NA	NA	NA	
2013	142	NA	NA	NA	
2014	163	NA	NA	NA	
2015	173	157	26	16	
2016	184	164	33	20	
Region Nordjylland					
År	Brutto*	Netto†	Nye	Ophørte	Døde
2012	52	43	1	2	7
2013	56	50	3	0	6
2014	70	62	15	1	7
2015	71	66	10	1	4
2016	75	63	12	2	9
Region Sjælland					
År	Brutto*	Netto†	Nye	Ophørte/ døde	
2012	116	104	21	12	
2013	125	113	21	12	
2014	131	114	18	17	
2015	129	116	15	13	
2016	132	114	16	18	

* Bruttoantallet er defineret som det totale antal patienter der har været i løbet af året, inkl. døde og ophørte.

† Nettoantallet er defineret som antallet af aktive patienter i slutningen af året, ekskl. døde og ophørte.

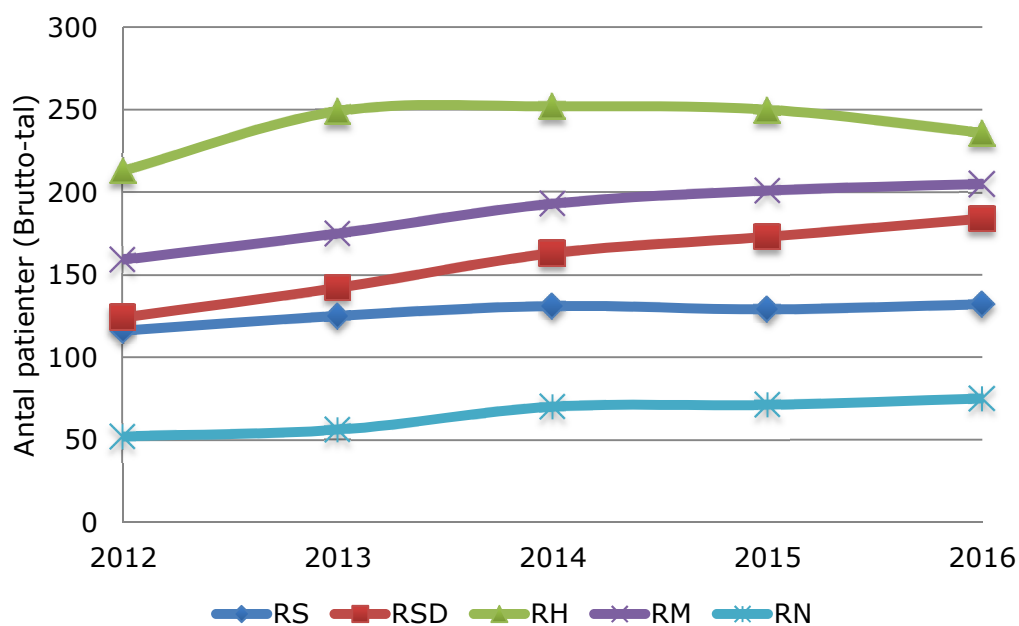
NA: Not Available – ingen tilgængelige data.

Det fremgår af Tabel 8.1, at antallet af nye patienter har været faldende i Region Sjælland og Region Hovedstaden. Der var i 2016 et større fald i antallet af nye ordninger i Region Hovedstaden. Det er uvist hvad der er årsagen til dette større fald i antallet af ordninger. Region Nordjylland, Region Midtjylland og Region Syddanmark har haft en

svag stigning af nye patienter, og det bemærkes at antallet af døde og ophørte respiratorbrugere svinger meget over tid.

Ikke-tilgængelige data (angivet "NA" i tabellerne) angående antal nye patienter, netto og ophørte/døde i Region Syddanmark har ikke været muligt at fremskaffe i årene 2012-2014. På grund af ændringer i staben i Region Syddanmark er bruttoopgørelserne i årene 2012-2014 og opgørelser fra 2015 og 2016 indhentet fra forskellige kilder i regionen.

Figur 8.1. Femårsudviklingen i bruttoantallet af patienter fordelt efter region



Tabel 8.2. National udvikling i antal HVM-patienter fra 2012-2016

Antal HVM-patienter på landsplan				
	Brutto*	Netto†	Nye	Ophørte/døde
2012	664	479 ^a	95 ^a	61 ^a
2013	747	535 ^a	114 ^a	70 ^a
2014	809	552 ^a	106 ^a	94 ^a
2015	824	722	126	102
2016	832	734	119	97
Procentvis udvikling på landsplan				
	Brutto*	Netto†	Nye	Ophørte/døde
2012-2013	13 %	NA	NA	NA
2013-2014	8 %	NA	NA	NA
2014-2015	2 %	NA	NA	NA
2015-2016	1 %	2 %	-6 %	-5 %

NA: Not-Available, ingen tilgængelig information.

^a OBS! Landsdata, mangler data fra Region Syddanmark.

Tabel 8.2 giver et overblik over antallet af HVM-patienter på landsplan gennem fem år. Det fremgår af tabel 8.2, at stigningen i bruttoantallet af patienter har været størst fra 2012-2013 med ca. 13 % og mindst i de seneste år 2014-2016 med en årlig vækst på 1-2 %. Den samlede procentvise stigning i bruttoantallet af patienter fra 2012 til 2016 er ca. 25 %.

Grundet manglende data fra Region Syddanmark er det ikke muligt at fremlægge den procentvise udvikling på landsplan (med hensyn til nettoantallet af patienter, nye samt døde/ophørte) fra 2012-2015. Dog kendes antallet af patienter i Region Syddanmark for årene 2015 og 2016, den procentvise udvikling på landsplan for disse to år er derfor udregnet og oplistet i tabellen. Dog er det valgt at fremlægge antallet af patienter i tabellen med det forbehold, at det totale antal patienter i årene før 2015 antages at være større, og derfor kan der muligvis ikke iagttages en så stor en stigning fra 2014 til 2015, som det ellers fremgår af tabellen.

Typen af patienter

I tabel 8.3 ses antallet af henvisninger med respiratoriske problemstillinger kontra ny-startede forløb på de tre respirationscentre fra 2011 til 2016. På Respirationscenter Vest er der registreret og igangsat nye forløb fra Region Midtjylland (RM), Region Nordjylland (RN) og Region Syddanmark (RSD).

Region Syddanmark begyndte i 2012 at udarbejde en model for hjemtrækning af patienter til behandling på OUH og derved etablering af RCS (87). Henvisninger inkluderer alle henvisninger til centret og dette inkluderer også henvisninger, som lægerne vurderer ikke er respiratorisk betingede.

Tabel 8.3. Antallet af henvisninger versus antallet af nystartede forløb på de tre respirationscentre i Danmark

Respirationscenter Vest				
	2013	2014	2015	2016
<i>Henvisninger</i>	733	581	691	728
<i>Nye forløb RM</i>	33	33	41	39
<i>Nye forløb RN</i>	14	18	10	12
<i>Nye forløb RSD</i>	-	-	-	-
Respirationscenter Øst				
	2013	2014	2015	2016
<i>Henvisninger</i>	462	384	210	131*
<i>Nye forløb RH</i>	57	40	34	19
<i>Nye forløb RS</i>	21	18	15	16
Respirationscenter Syd x				
	2013	2014	2015	2016
<i>Henvisninger</i>	-	-	-	-
<i>Nye forløb RSD</i>	-	-	-	-

*Data fra januar til oktober måned 2016

x Tal for antal henvisninger på Respirationscenter Syd er tilsendt efter udarbejdelsen af rapporten, og ses derfor i bilag 11.

Der er stor aktivitet i respirationscenter Vest, også selvom det kun er en mindre del, som efterfølgende får en respiratorisk ordning igennem respirationscentret. Grundet skift til den nye Sundhedsplatform (fra 1. november 2016) har det kun været muligt for RCØ at fremskaffe data frem til oktober måned. Ved en simpel fremskrivning i antallet af henvisninger til RCØ vil antallet af henvisninger alt andet lige forventes at ende på ca. 160 henviste patienter for 2016. Der kan dermed stadig observeres et fald i antallet af henvisninger til RCØ over årene 2013-16, imens der har været en stigning i henvisningerne til RCV i samme periode. Ifølge læger på RCØ kan den store kontrast til antallet af henvisninger på RCV forklares ved, at henvisningstallene fra RCV inkluderer patienter med søvnapnø, en patientgruppe som ikke udredes og behandles på RCØ. Disse patienter bliver i stedet behandlet på Dansk Center for Søvnmedicin.

Det har på nuværende tidspunkt ikke været muligt at skaffe data vedrørende antal henvisninger til Respirationscenter Syd. Udredning af henviste patienter er ressourcekrævende for et respirationscenter, og kræver flere konsultationer kombineret med flere gentagne natlige monitoreringer og målinger.

I tabel 8.4 er patienterne fordelt efter diagnose. Det har kun været muligt at fremskaffe diagnoseoplysninger fra Region Midtjylland i alle årene. Region Nordjylland og Region Syddanmark har oplyst diagnoserne i årene 2015 og 2016, dog har Region Syddanmark oplysninger om ALS-patienter helt tilbage fra 2012. Det fremgår af tabel 8.4 og figur 8.2, at patienter med anden form for muskelsvind er den største kendte patientgruppe i både Region Midtjylland, Region Nordjylland og Region Syddanmark.

Tabel 8.4. Patienter fordelt efter diagnosegruppe

	Region Midtjylland					
	ALS	Muskelsvind	Para-/tetraplegi ×	Hjerneskode*	Andet±	Total
2012	21	53	18	10	38	140
2013	29	70	21	21	34	175
2014	37	71	18	24	43	193
2015	44	73	18	19	47	201
2016	44	74	18	21	48	205
	Region Nordjylland					
	ALS	Muskelsvind	Para-/tetraplegi ×	Hjerneskode*	Andet±	Total
2012	NA	NA	NA	NA	NA	NA
2013	NA	NA	NA	NA	NA	NA
2014	NA	NA	NA	NA	NA	NA
2015	9	14	10	4	34	71
2016	11	15	8	4	37	75
	Region Syddanmark					
	ALS	Muskelsvind	Para-/tetraplegi ×	Hjerneskode*	Andet±	Total
2012	27	NA	NA	NA	NA	NA
2013	29	NA	NA	NA	NA	NA
2014	42	NA	NA	NA	NA	NA
2015	46	59	14	4	50	173
2016	47	56	19	6	56	184

* Patienter med apopleksi er inkluderet.

± Denne kategori indeholder blandt andet patienter med neuropatisk lidelse, patienter med glasknogle (osteogenesis imperfecta), sklerosepatienter, personer med medfødt behov, børn med midlertidigt behov, patienter, som oplyst var i "andet"-kategorien samt patienter hvor oplysninger om diagnose mangler.

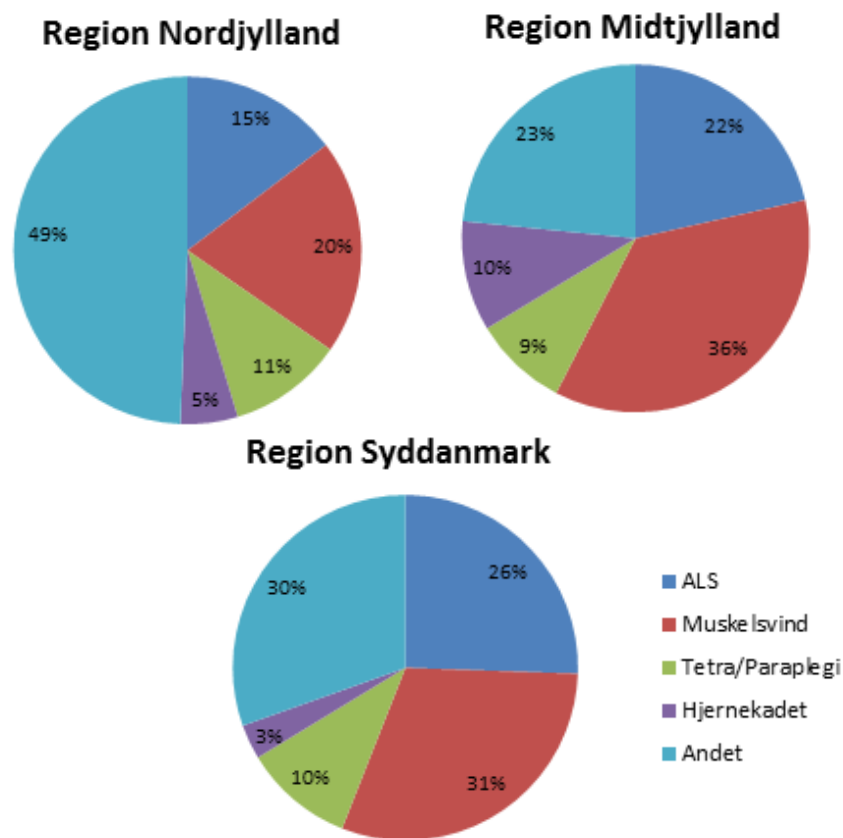
× Ulykker er inkluderet i denne kategori, da ulykker ikke betragtes som en diagnose.

NA: Not Available – ingen tilgængelige data.

Gruppen af patienter, som er kategoriseret i kategorien "andet", fremstår som en forholdsvis stor gruppe i Region Syddanmark og Region Nordjylland. Årsagen til dette er, at kategorien "andet" inkluderer henholdsvis mange børnesager og flerfacetterede diagnoser/patientgrupper, hvor en fælles betegnelse ikke er fundet da antallet af diagnoser i en gruppe var mindre end fem.

Fordelingen af diagnoser er kun oplyst på respirationscenterniveau (herunder Øst og Vest) i rapporten (6). Fordelingen af diagnoser for henholdsvis 2015 og 2016 er sammenlignelig på tværs af de tre oplyste regioner i tabel 8.4, også hvis man tager højde for, at kategorien indeholdende "andet" er delvist større i Region Syddanmark. Figur 8.2 visualiserer patientfordelingen i de tre regioner med data fra tabel 8.4 for år 2016. Det fremgår således af figuren, at ALS og anden form for muskelsvind er de to diagnoser som er mest udbredte i alle tre regioner.

Figur 8.2. Patientfordeling fordelt på diagnoser for tre regioner i Danmark, 2016



Tabel 8.5. Fordelingen af børne- og voksenordninger for 2015 og 2016

Region Hovedstaden*				
År	Voksne	Børn	I alt	Børn (%)
2015	161	56	217	26
2016	152	50	202	25
Region Midtjylland*				
År	Voksne	Børn	I alt	Børn (%)
2015	144	22	166	13
2016	161	30	191	16
Region Nordjylland*				
År	Voksne	Børn	I alt	Børn (%)
2015	52	11	63	17
2016	50	11	61	18
Region Syddanmark±				
År	Voksne	Børn	I alt	Børn (%)
2015	159	14	173	8
2016	169	15	184	8
Region Sjælland*				
År	Voksne	Børn	I alt	Børn (%)
2015	90	26	116	22
2016	88	26	114	23

* Opgjort i netttotal

± Opgjort i bruttotal

Det fremgår af tabel 8.5, at antallet af børneordninger varierer meget mellem regionerne. Region Hovedstaden og Region Sjælland har procentvis flere børneordninger end de resterende regioner i årene 2015 og 2016. Region Syddanmark har færre børneordninger end de øvrige regioner, men der skal her tages højde for, at det er på baggrund af bruttotal, hvorfor det procentvise tal vil være lavere.

Tabel 8.6 viser fordelingen og anvendelsen af henholdsvis faglærte og ufaglærte ordninger for årene 2015 og 2016. I denne kontekst er faglærte ordninger med anvendelse af et specialiseret beredskab af professionelle sundhedspersoner, eksempelvis sygeplejersker eller social- og sundhedsassistenter med nødvendig respiratorisk erfaring og/eller oplæring. Ufaglærte ordninger dækker over personale uden sundhedsfagliguddannelse. Hjælpere i ufaglærte ordninger har fået oplæring i den respiratoriske behandling til håndtering af HVM-patienter, jf. kap. 7.

Om en ordning er faglært eller ufaglært er relevant, da selv en minimal stigning eller et fald i antallet af faglærte ordninger kan have en relativ stor indvirkning på udgiftsniveauet det pågældende år, da faglærte ordninger må forventes at være dyrere end ufaglærte ordninger.

Tabel 8.6. Fordelingen af faglærte/faglærte ordninger for 2015 og 2016

Region Hovedstaden*				
År	Faglært	Ufaglært	Total	Faglært (%)
2015	40	177	217	18
2016	34	168	202	17
Region Syddanmark±				
År	Faglært	Ufaglært×	Total	Faglært (%)
2015	40	133	173	23
2016	38	146	184	21
Region Midtjylland±				
År	Faglært	Ufaglært×	Total	Faglært (%)
2015	59	142	201	29
2016	65	140	205	32
Region Sjælland*				
År	Faglært	Ufaglært×	Total	Faglært (%)
2015	15	101	116	15
2016	16	98	114	16

* Opgjort i netttotal

± Opgjort i Brutttotal

× Inkluderer ordninger med ukendt faglighed

Det fremgår af tabel 8.6, at i Region Syddanmark og Region Hovedstaden er omkring en femtedel af hjælperordningerne faglærte. Region Nordjylland har på nuværende tidspunkt ingen opgørelser af det faglige niveau på deres hjælperordninger. I Region Midtjylland er andelen af faglærte ordninger en del større (ca. hver tredje ordning er faglært).

Der kan observeres en stigning i de faglærte ordninger i Region Midtjylland og i mindre grad i Region Sjælland, mens andelen er let faldende for Region Syddanmark og Region Hovedstaden. En af forklaringerne kan være at Respirationscenter Vest sender patienter hjem med et midlertidigt faglært hold. Dette midlertidige hold bliver efter op til seks måneder udskiftet med et permanent hold, som typisk består af ufaglærte (jf. afsnit 7.5.3). Dog er der sket en udvikling i løbet af de senere år, hvor flere kommuner i Region Midtjylland kræver, at der på holdene skal være faglært personale i forhold til at få uddelegeret deres plejeopgaver. I 2016 blev der i alt startet 12 nye børn, som alle har en faglært ordning. Antallet af nye børnesager i 2016 var således også det højeste antal nystartede børn med respiratorisk behandling og overvågning. Børneordningerne har ofte hjælperhold som er faglært jf. data fra Respirationscenter Vest og data fra Region Hovedstaden.

Levetid for patienter i respiratorisk behandling

Et dansk ikke-randomiseret studie af ALS-patienter henvist til RCV i perioden 1998-2012 har vist, at den forventede restlevetid for patienterne hænger sammen med sygdomsprogression og patienternes alder ved påbegyndelse af respiratorisk behandling i hjemmet (25). Studiet indikerer, at valget af apparatur og patienternes middellevetid hænger sammen, men studiet kan ikke forklare disse sammenhænge. Patienter som ikke får behandling har en gennemsnitlig restlevetid på mindre end to år, mens patienter, som udelukkende får NIV, typisk lever lidt mere end to år. I de tilfælde hvor NIV bliver kombineret med invasiv respiratorbehandling, er den gennemsnitlige restlevetid knap fem år og ved udelukkende invasiv respiratorbehandling omkring tre år (25). Tidligere levede patienter med muskelsvind og paraplegi kortere end den øvrige befolkning, men den medicinske udvikling har medført, at disse patienters levetid er blevet væsentligt forbedret så deres levetid nu matcher den gennemsnitlige befolkning (88,89). Patienter med tetraplegi har også fået levetiden hævet, men deres middellevetid er stadig omkring 10 år kortere end hos den øvrige befolkning (ibid.). Der er ikke fundet studier, som rapporterer vedrørende restlevetiden for patienter med hjerneskade.

Gennemsnitlige omkostninger per patient og totale omkostninger

Tabel 8.7 og tabel 8.8 giver et indblik i omkostningerne for patienter i respiratorisk behandling i eget hjem. Omkostningerne er opgjort på regionsniveau med hjælperordninger, apparatur og diverse omkostninger. Kommuneandelen er det beløb, som kommunerne betaler til regionen jf. deres aftalte fordelingsnøgle. Men kommunerne har i mange tilfælde flere udgifter til patienterne, som ikke er medtaget i tabel 8.7 og 8.8, blandt andet udgifter til kørestole, rengøring, transport, generelt forebyggelsesarbejde etc. Regionens direkte omkostninger er angivet som 'regional omkostning' i tabellen, imens der i de totale omkostninger er medregnet den kommunale medfinansiering, opdelt efter hvad kommunen betaler tilbage til regionen (+), og hvad kommunen får refunderet af regionen (-). Det er på baggrund af de totale omkostninger, der er beregnet en gennemsnitlig omkostning per patient for det givne kalenderår.

Region Syddanmark (RSD) har ikke kunnet levere data på et mere detaljeret niveau, i forhold til hjælperordninger og apparatur, men kun oplyst regional og total udgift. Omkostningerne for Region Syddanmark er således ikke opgjort på samme måde som de øvrige Regioner. Det har blot været muligt for regionen på nuværende tidspunkt at oplyse de totale omkostninger ved respiratorbehandling i eget hjem for henholdsvis 2015 og 2016.

Tabel 8.7. Omkostninger ved respiratorbehandling i 2015 i mio. kr.

	RM	RH	RSD	RN	RS	Nationale omkostninger
Hjælperordninger	111,3	337,0	NA	72,9	121,5	642,7
Apparatur	4,1	3,6	NA	1,4	6,2	15,3
Diverse*	1,8	0,1	NA	2,1	2,3	6,3
Kommuneandel (+)¥	18,5	56,3	NA	2,4	7,3	84,5
Kommuneandel (-)†	117,5	µ	NA	µ	54,2	NA
Regionale omkostninger	234,7	340,7	259,0	76,4	176,9	1087,7
Total	253,2	397,0	342,0	78,8	191,5	1262,5
Gnsn. per patient	1,3	1,6	2,0	1,1	1,5	1,5

* Inkluderer fx administrative omkostninger, omkostninger til ergoterapeut, befordring, omkostninger til mobiltelefon, ESDH-kursus, kontorartikler, forsikringer, webhotel, strømforbrug, løn til respirationsteam etc.

¥ Refusion fra kommuner til regionen, regionalt forankrede ordninger med udgiftsdeling.

† Refusion fra regionen til kommunerne, kommunalt forankrede ordninger med udgiftsdeling.

NA: Not Available – ingen tilgængelige data.

µ Der er ikke opgjort på samme måde som de øvrige regioner med henblik på kommunal udligning.

Tabel 8.8: Omkostninger ved respiratorbehandling i 2016 i mio. kr.

	RM	RH	RSD	RN	RS	Nationale omkostninger
Hjælperordninger	137,3	301,1	NA	88,1	128,4	655,0
Apparatur	1,1	3,4	NA	1,7	7,2	13,4
Diverse*	1,3	1,1	NA	2,6	2,4	7,4
Kommune andel (+)¥	22,2	68,6	NA	7,2	9,4	107,4
Kommune andel (-)†	108,6	µ	NA	µ	47,6	NA
Regionale omkostninger	248,3	305,6	269,0	92,4	176,3	1091,6
Total	270,5	374,2	379,0	99,6	195,1	1318,4
Gnsn. per patient	1,5	1,6	2,1	1,3	1,5	1,6

* Inkluderer fx administrative omkostninger, omkostninger til ergoterapeut, befordring, omkostninger til mobiltelefon, ESD-kursus, kontorartikler, forsikringer, webhotel, strømforbrug, løn til respirationsteam etc.

¥ Refusion fra kommunerne til regionen, regionalt forankrede ordninger med udgiftsdeling.

† Refusion fra regionen til kommunerne, kommunalt forankrede ordninger med udgiftsdeling.

NA: Not Available – ingen tilgængelige data.

µ Der er ikke opgjort på samme måde som de øvrige regioner med henblik på kommunal udligning.

Tabel 8.7 og 8.8 viser, at de samlede omkostninger ved HVM var 1,262 mia. kr. i 2015 og 1,318 mia. kr. i 2016. Omkostningerne er opgjort i årets priser, og estimerne er således ikke prisjusterede. Samlet set, kan der observeres en stigning i de totale omkostninger ved respiratorbehandling i eget hjem for samtlige af de fem regioner i Danmark fra 2015 til 2016, også hvis man ser bort fra en prisudvikling. Ligeledes kan der observeres en stigning fra 2015 til 2016 på ca. 46 mio. kr., hvis man justerer for prisudviklingen. Stigningen svarer til en vækst i omkostningerne på 4 %. Dette er højere end væksten i antal patienter på 1 %, og der er således tale om reel stigning i omkostningerne per patient.

Fraset Region Syddanmark, så har Region Hovedstaden, Region Midtjylland, Region Sjælland og Region Nordjylland i faldende orden, de største omkostninger. Overordnet set kan årsagen til stigningen i omkostningerne relateres og forbindes til hjælperordningerne, når man sammenholder tabel 8.7 og tabel 8.8., hvorimod omkostningerne til blandt andet apparaturer og diverse ligger stabilt/faldende. I Region Hovedstaden anvendes flere vikarordninger fra private bureauer og dertil færre BPA-ordninger, som ellers er de billigste ordninger.

Der er også forskel på, hvor mange ordninger der er regionale og kommunale, hvilket har betydning for, hvor mange som går frem og tilbage mellem kommune og region. Årsagerne til de regionale forskelle er ikke kendte, men en række mulige forklaringer er følgende:

- Opgørelserne er ikke transparente og derfor ikke nødvendigvis ensartede. Omkostninger er ikke opgjort på samme måde på tværs af regioner.
- Fordelingen af patienterne på diagnosegrupper er forskellig i regionerne jf. figur 8.2.
- Mulige forskelle mellem kommuner og deres bevilliger samt fordelingsnøgler.
- Forskelle i regionernes/kommunernes forhandlinger i forhold til hjælperordninger.
- Forskelle i respirationscentrenes håndtering af patientforløb og bemanding af opgaver.

Der er forskel på om, hjælperordningen er regionalt eller kommunalt forankret (jf. afsnit 7.5.3). BPA-ordninger er den billigste ordning, såfremt patienten kan være arbejdsgiver, hvilket ikke altid er muligt. Ifølge en kontaktperson fra Aarhus kommune koster en 24-timers BPA-ordning til hjemmerespiratorpatienter i gennemsnit 1,9 mio. kr. årligt. Det er dog ikke blevet udfoldet og specificeret yderligere fra kommunen, hvad BPA-ordningerne til HVM-patienter konkret dækker over.

I tabel 8.9 er der opstillet enhedsomkostninger per patient for de forskellige diagnosegrupper, og herunder hvilket apparatur/behandling grupperne hyppigst får i Region Syddanmark. Det skal understreges, at det ikke er alle patienter med den givne diagnose, som får respiratorisk behandling. Det er derimod de registrerede patienter, som får respiratorisk behandling i Region Syddanmark, og deraf procentdelen af dem, som får/anvender det givne apparatur/behandlingsapparat. Det fremgår af tabellen, at 70 % af ALS-patienterne med HVM primært modtager invasiv respiratorisk behandling. En ALS-patient med denne type behandling er estimeret til gennemsnitligt at koste 1,9 mio. kr. årligt. Gennemsnittet varierer dog fra 0,4-4 mio. kr. årligt per patient. Dette medfører en potentiel afvigelse på 240 %, jf. tabel 8.9.

For HVM-patienterne i Region Syddanmark modtager patientgruppen med muskelsvind enten respirator- eller BiPAP-behandling. Her ses en gennemsnitlig forskel på 0,6 mio. kr. For HVM-patienterne med para-/tetraplegi har 42 % af patienterne i Region Syddanmark en respirator og koster i gennemsnit 1,2 mio. kr. årligt. 50 % af HVM-patienterne med hjerneskade i Region Syddanmark

modtager invasiv respiratorbehandling. Den gennemsnitlige omkostning er estimeret til 2,5 mio. kr. årligt med en afvigelse på 50 %. Denne patientgruppe er dermed den dyrest, når man sammenligner på tværs af diagnosegrupperne.

Tabel 8.9. Diagnose og årlig omkostning, opgørelser fra Region Syddanmark 2016

Diagnosegruppe	%	Apparatur	Gnsn. mio. kr.	Afvigelse (%)
ALS	70	Respirator	1,9	240
Muskelsvind	41	Respirator	1,5	200
Muskelsvind	39	BIPAP	0,9	220
Para-/tetraplegi	42	Respirator	1,2	150
Hjerneskade	50	Respirator	2,5	50
Hjerneskade	50	Andet*	1,7	60
Andet	20	Respirator	2,2	170
Andet	36	Andet*	1,7	430
Andet	26	Andet*	1,6	240

* Andet er enten på forhånd kategoriseret som værende "andet" eller manglende data om det anvendte apparatur.

Gruppen af "andet" indeholder, som tidligere nævnt, enkelte børnesager. Dette kan muligvis forklare de estimerede gennemsnitlige omkostninger per patient for denne gruppe, da børnesagerne antageligvis trækker gennemsnittet op på grund af primært faglærte hjælperhold.

Betydningen af overvågningsintensiteten for omkostningerne per patient

Det er kun patienter med respiratoriske behov med hjælperordninger, som indgår i analyserne. Men patienternes overvågningsgrad varierer, hvilket Region Syddanmark har data for. I årene 2015 til 2016 er der et voksende antal som har 24-timers-overvågning. "<24"-timers-overvågning" dækker over patienter med mindre end 24-timers-overvågning samt patienter uden oplysninger om overvågning.

Tabellen herunder viser således, at overordnet set så har de fleste HVM-patienter i Region Syddanmark en 24-timers-ordning og er dermed de dyreste (2015: 66 %, 2016: 71 %). Ligeledes viser fordelingen fra 2015-2016 at andelen af HVM-patienter med 24-timers-overvågning er blevet større, når man sammenholder de to kalenderår. Der kan i tabellen observeres en stigning i de gennemsnitlige omkostninger per patient i Region Syddanmark hos gruppen af HVM-patienter med mindre end 24-timers-overvågning. Omvendt er der sket et fald i de gennemsnitlige omkostninger for HVM-patienter med 24-timers-overvågning.

Tabel 8.10. Overvågningsintensitet med omkostninger, Region Syddanmark

2015		
	24 t	<24tx
Patienter n (%)	114 (66)	59 (34)
Patienter ved beregning*	108	46
Gnsn. per patient, mio. kr.	2,5	1,5
2016		
	24 t	<24tx
Patienter n (%)	131 (71)	53 (29)
Patienter ved beregning*	123	44
Gnsn. per patient, mio. kr.	2,4	1,8

* Patienter, hvor både data om overvågningstimer og omkostninger er oplyst.

x Inkluderer patienter, som har uoplyst antal overvågningstimer, men omkostningerne kendes.

Det er svært at finde en direkte årsag til denne stigning i de gennemsnitlige omkostninger per HVM-patient i Region Syddanmark, da man kan diskutere, om der er tale om tilfældige udsving, idet data kun er tilgængeligt for en toårig periode, og derfor kan der udelukkende analyseres ud fra disse år. Tabellen indikerer, at til trods for at der er registreret flere HVM-patienter med 24-timers-ordning i Region Syddanmark, så er HVM-patienterne med mindre end 24-timers-ordning blevet dyrere, samtidig med at der er behandlet to HVM-patienter mindre i 2016 end i 2015.

8.4.3 Nye mulige organisationsformer

I organisationskapitlet er der blevet identificeret fem organisatoriske områder med potentiale i forhold til fremadrettet visitationspraksis og organisering. Flere af disse har mulige konsekvenser for omkostningerne til respiratorbehandling i eget hjem. Det gælder følgende:

1. Styrket dialog med henvisende afdeling forud for visitation, fx ved ordning med udgående læge fra respirationscentret.
2. Igangsætning af HVM-behandling baseret på systematisk dialog med patienter, fx ved implementering af beslutningsstøtteværktøj for ALS-patienter.
3. Tidlig inddragelse af patientens hjemkommune i forbindelse med igangsætning af HVM-behandling.

Herunder beskrives en række forhold, som kan få betydning for de økonomiske konsekvenser af de organisatoriske ændringer.

- *Ad 1.: Styrket dialog gennem udgående læge*

Ordningen med udgående læge har været implementeret og i anvendelse siden ultimo 2013 på RCØ, med henblik på at sikre kvalificeret og rettidig henvisning til respirationscentret. Den udgående læge varetager dette ved ugentlig rådgivning (telefonisk og/eller ved besøg) af læger på henvisende afdelinger i forhold til vurdering af patienter. Antallet af henvisninger på RCØ er faldet, jf. tabel 8.3, og implementeringen af udgående læge kunne være en af de mulige årsager hertil, men andre organisatoriske ændringer kan også have bidraget til faldet i antal henvisninger. Antallet af nye hjælperordninger til HVM-patienter er faldende i Region Hovedstaden og Region Sjælland fra 2013 og frem.

- *Ad 2.: Systematisk dialog ved hjælp af beslutningsstøtteværktøj*

Beslutningsstøtteværktøjet er under implementering i RCV i 2017. Beslutningsstøtteværktøjet skal bidrage til at understøtte dialog om behandlingsmuligheder med patienter og deres pårørende. Dette med henblik på at bidrage til at kvalificere og systematisere beslutningstagen vedrørende igangsætning af respiratorbehandling; herunder systematisk klarlægge muligheder og konsekvenser ved respiratorisk behandling, tegne et realistisk billede af hverdagen som respiratorbruger med overvågning samt facilitere en ligeværdig drøftelse af respiratorisk og palliativ medicinsk behandling. Beslutningsstøtteværktøjet er ikke udviklet med det primære formål at mindske antallet af igangsatte forløb, men derimod med henblik på at sikre igangsætning af meningsfulde og ønskede patientforløb med færre udfordringer og frustrationer for patienter og hjælperhold.

Effekten ved og konsekvenserne af beslutningsstøtteværktøjet er endnu ukendte, men det er håbet, at der på et tidspunkt gennemføres en evaluering af effekten af implementeringen af beslutningsstøtteværktøjet på RCV. En efterfølgende økonomisk analyse af effekten af dette værktøj er således nærliggende. På RCV er det dokumenteret, at en del af de patienter, som hvert år starter i respiratorisk behandling, enten dør eller vælger at afslutte den respiratoriske behandling i samme år. Dette forhold er skildret i tabel 8.11 (80).

Tabel 8.11. Patientforløb med respiratorisk betinget overvågning*, der afsluttes inden for samme kalenderår, som de er påbegyndt, fra 2011-16

	2011	2012	2013	2014	2015	2016
Patienter total (brutto)	143	159	175	193	201	205
Nye i samme år	24	34	33	33	41	39
Ophørt i samme år	1	4	0	6	4	1
Døde i samme år	3	4	2	4	8	3
Andel ophørte/døde i samme år	17 %	24 %	6 %	30 %	29 %	10 %

* Inkluderer både voksen- og børnesager.

Det fremgår af tabel 8.11, at det er en forholdsmæssig stor procentdel af patienterne, som enten ophører med den respiratoriske behandling eller dør inden for samme kalenderår, som de er startet. Ifølge repræsentanter fra respirationsteamet på Respirationscenter Vest behøver der ikke nødvendigvis være nogen systematik eller mønster i dette. Både fra et patient-/pårørende perspektiv, og fra et ressourcemæssigt perspektiv kan man stille spørgsmålstegn ved, om den respiratoriske behandling i disse tilfælde er hensigtsmæssig. Set fra et økonomisk perspektiv tænkes her primært på ressourcer og omkostninger brugt til at optræne og rekruttere hjælpere, sagsbehandling i kommunen, tilpasning af patientens bolig til både den respiratoriske behandling samt arbejdsplads for hjælperhold etc. Start af respiratorisk behandling er dyrere end at have et vel-fungerende respiratorisk hjælperteam. Det kræver minimum tre ugers oplæring på et respirationscenter for et hjælperteam, før de kan varetage den respiratoriske behandling i patientens eget hjem.

- *Ad 3.: Tidlig inddragelse af hjemkommunen*

Der indikeres i den organisatoriske analyse potentialer i at sikre tidlig inddragelse af patientens hjemkommune i forbindelse med igangsætning af HVM. Dette i forhold til at imødekomme udfordringer med sen udskrivning fra intensivafdelinger og brug af midlertidige, dyre aflastningspladser og vikarbureauer. Desuden muliggøres tidlig forventningsafstemning med patienter med henblik på at mindske igangsætning af udfordrende og omkostningstunge forløb. I dette afsnit fokuseres på betydningen af tidlig inddragelse af hjemkommunen i forhold til udfordringerne med brugen af intensivafdelinger og midlertidige vikarbureauer og hjælperhold.

Indlæggelse på en intensivafdeling er dyrere end respiratorbehandling i eget hjem. Tidlig inddragelse har potentialer i forhold til at mindske brugen af regionernes intensivafdelinger til respiratorpatienter, men stiller samtidig et større krav til respirationscentrenes bemanning og giver spidsbelastninger i forhold til hjælperuddannelse og oprettelse af midlertidige vikarhold. Om der er en besparelse ved tidlig inddragelse er derfor uvist.

Et midlertidigt hjælperhold er i et økonomisk perspektiv at foretrække, frem for at lade patienter indlægge på en intensivafdeling frem til ansættelse af hjælpere i en kommunal/regional ordning. Et døgn på en intensivafdeling koster 24.537 kr., hvilket er prisen for intensiv behandling, som afregnes mellem regionerne (*tillæg for alm. ophold på intensivafdeling: Takster for højt specialiseret behandling 2016-niveau*). Denne pris skal sammenholdes med, at et midlertidigt 24-timers vikarhold på social-og sundhedsassistent niveau koster 53.000 kr. *per uge*. Forskellen er således 118.759 kr. *per uge* i HVM-favør. Et midlertidigt vikarhold er dog noget dyrere end et regionalt hjælperteam (37.000-45.000 kr./uge) eller kommunal BPA-ordning (37.000-40.000 kr. /uge) (80). Besparelsen fra midlertidigt hjælperhold til permanent hjælperhold vil være ca. 13.000-16.000 kr. *per uge per patient* ved omlæggelse fra privat vikarbureau til kommunal BPA-ordning eller 8-16.000 kr. *per uge per patient* ved omlæggelse fra vikarbureau til regionalt team. RCV pri-

oriterer at få patienterne udskrevet fra intensiv afdeling inden for en måned og giver dem et midlertidigt hjælperhold frem til, at kommunen/regionen stiller med et permanent hold, som er klar til oplæring. En måneds ophold på intensivafdelingen koster 736.110 kr. RCØ har typisk patienten indlagt på intensivafdeling i 21 dage, som kommunen/regionen har til at stille med hjælperhold – prisen for 21 dages indlæggelse er 515.277 kr.

8.4.4 Kasseøkonomisk analyse af udgifter fordelt på sektorer

Fordelingen mellem kommunal og regional finansiering har været kendetegnet ved, at respiratorisk behandling er et regionalt ansvar og finansieres regionalt. Udgifter til hjælp og pleje efter servicelovens bestemmelser (fx plejeopgaver, hjælpemidler, rengøring i hjemmet), som ikke er respiratorisk betinget, er kommunens ansvar. Denne model er blevet udfordret, da det i mange tilfælde giver mening at samme hjælper udfører både respiratoriske og plejemæssige opgaver.

Hidtil har kommunerne og regionerne forhandlet sig frem til en fordelingsnøgle for hjælperordningen, når det var samme hjælper som kunne udføre begge opgaver ved såkaldt døgnbemanding. I 2015 kom *"Bekendtgørelsen om fælles hjælperordninger til personer med kronisk respirationsinsufficiens"*, nr. 987/2015. Bekendtgørelsen foreskriver, at der i tilfælde, hvor der ved respiratorisk behandling og pleje kan være tale om fælles opgaveløsning, så skal dette tilstræbes (jf. kap. 7). Kommunen betaler da 33 % og regionen betaler 67 % til hjælperhold. Børneordninger er dog i mange sammenhænge anderledes, da det påkrævede faglige niveau ofte er højere end for den gennemsnitlige respiratorbruger. Forældrene udfører i mange tilfælde plejeopgaverne i forhold til deres børn, hvilket medfører, at børneordningerne i mange tilfælde udelukkende er regionalt finansieret. Den nye bekendtgørelse har givet en ramme til at forhandle omkostningerne. Respiratorisk behandling i eget hjem er en af de eneste muligheder for at flytte høj faglig hospitalsbehandling og evt. sygepleje til eget hjem, hvilket der ellers ikke er præcedens for på andre områder. Respirationscentre vil kun modtage patienter, som er stabile (ingen alvorlig komorbiditet), og som har respiratorisk insufficiens, hvilket er en præmis for at påbegynde forberedelserne til respiratorisk behandling i eget hjem. Denne præmis er ofte ikke indfriet, men med henvisningen åbnes muligheden for at flytte behandlingen til eget hjem, hvilket der ikke tidligere har været mulighed for. Denne problemstilling kan dog ikke belyses yderligere fra et økonomisk perspektiv.

Fordelingsnøgle

Information om den nuværende fordelingsnøgle har været sparsom. Ifølge Årsrapport 2016 for Respirationscenter Vest er det vurderet, at bekendtgørelsen har medført en omfordeling på omkring 10 mio. kr., idet der har været en større refusion fra kommunerne (84). Der er dog ingen information om den gennemsnitlige fordeling for fordelingsnøglen i Region Midtjylland.

Region Syddanmark har fremsendt data for fordelingsnøglen. Det fremgår af tabel 8.12, at bekendtgørelsen har ændret fordelingen af refusionen, når 2015 og 2016 sammenlignes. Gennemsnittet for fordelingsnøglen er 83 % (som finansieres af regionen) i 2015 og 74 % i 2016.

Tabellen viser, at en stor del af ordningerne bevæger sig hen imod den anbefalede fordelingsnøgle på ca. 67/33), når man sammenligner 2016 med 2015. Dog er antallet af ordninger, hvor regionen betaler mere end 96 % steget en smule, mens der er sket et stort fald fra 2015 til 2016 i antallet af patientsager, hvor regionen betaler mellem 69-96 %, og ligeledes for sagerne hvor regionen betaler mindre end 64 %.

Tabel 8.12. Antal patientsager med fordelingsnøgler i Region Syddanmark for 2015 samt 2016

Region Syddanmark		
Andel af udgiften som betales af regionen	2015	2016
>96 %	34	37
69-96 %	74	21
64-68 %	16	90
<64 %	31	19
Ingen information	18	17
Total	173	184

8.5 Sammenfatning

Formålet med økonomikapitlet var, at beskrive de totale omkostninger ved HMV i Danmark og omkostninger per patient. Det er kun delvist lykkedes at indsamle de ønskede data fra de tre regionale respirationscentre i Danmark eller på regionsniveau. Men de data, vi har kunnet skaffe, viser, at antallet af patienter, som benytter respiratorbehandling i eget hjem, er øget fra 2012 til 2016, hvor væksten har udjævnet sig en del. I 2015 og 2016 var der i alt 824 og 832 patienter på landsplan, som modtog HMV (inkl. hjælperordninger). Omkostningerne ved HMV beløb sig i 2015 og 2016 til henholdsvis 1,26 og 1,32 mia. kr., svarende til en vækst på ca. 4 % (indekseret med prisåret 2016), hvilket er et gennemsnit på 1,5 mio. kr. per patient i 2016.

Patientgruppen er meget heterogen, og omkostningerne per patient varierer mellem de forskellige patientgrupper. Patientens behov (med baggrund i diagnosen) og anvendt apparatur har således betydning for størrelsen af omkostningerne. Der er forskel på, om en hjælperordning har faglærte eller ufaglærte hjælperhold, men det vides ikke, om dette har langtrækkende konsekvenser for indlæggelse og oplæring af hjælperhold. Fremtidige analyser bør inkludere information på patientniveau, hvor det er muligt at se de forskellige diagnoser, og hvordan fordelingen af omkostninger samt hjælpernes faglige niveau er. Fremtidige analyser bør medtage omkostninger uanset om disse er finansieret kommunalt, regionalt eller via egen finansiering/forældre-finansiering.

Der er forsøgt foretaget en vurdering af de økonomiske konsekvenser af forslag til organisatoriske områder med potentiale i forhold til fremadrettet visitationspraksis og organisering.. Dette har imidlertid været vanskeligt, idet disse forslag ikke kvantificerer de forventede effekter. Der er desuden ingen konkrete estimater vedrørende, hvor stor den forventede effekt af en ændret organisering vil være. Den økonomiske analyse viser, at der er stort behov for bedre og mere ensartede data fra regionerne og fra respirationscentrene, og at der på baggrund af de foreliggende data kun kan foretages en meget overordnet vurdering af omkostningerne ved behandling af patientgruppen. Dog viser analysen, at der er flere potentielle patientgrupper, som kan få tilbudt HMV. En udvidelse af patientgruppen kan få omkostningerne til at stige betragteligt og sætte et yderligere pres på omkostningerne til HMV på regional og national basis. Der bør således arbejdes hen imod årlige opgørelser af ressourceforbruget i respirationscentrene, hvor antal henvisninger og antallet af patienter i behandling vil give information om arbejdsbyrden for det givne center. Derudover bør der på udvalgte diagnosegrupper også foreligge antal patienter, som er i behandling i det givne år.

Hele området med respiratorbehandling har behov for originale studier, evalueringer og undersøgelser af det økonomiske perspektiv. Et idealscenarie ville være, at man kunne opstille en analyse, som omfatter såvel den kliniske og patientoplevede effekt som omkostningerne ved respiratorbehandling i eget hjem sammenlignet med relevante alternativer. Ligeledes er ønsket, at der på tværs af regioner, kommuner og respirationscentre arbejdes hen imod en mere ensartet og universel model, så data og procedurer lettere kan overføres og sammenlignes på tværs af Danmark og med andre lande. Her kunne et landsdækkende register være en begyndelse.

9 Samlede resultater

Foreliggende medicinske teknologivurdering (MTV) omhandler brugen af respiratorbehandling i eget hjem (HMV). MTV'en er udarbejdet på foranledning af sundhedsdirektørkredsen i Danske Regioner. Baggrunden herfor er, at der de seneste knap fem år er sket en vækst i brugen af HMV i Danmark. I 2012 var der på landsplan 664 hjælperordninger mod 838 i 2016, svarende til en stigning på 26 %. Væksten i antallet af hjælperordninger varierer fra 11 % til 53 % i de fem regioner. Det er i nogen udstrækning uklart, hvad der forårsager den betydelige vækst i antallet af hjælperordninger samt variationen i væksten mellem regionerne. Omkostninger til respiratorpatienter i hjemmet varierer, men er betydelige, og omkostninger til et enkelt hjælpe-team kan løbe op i flere millioner kroner på årsbasis. De regionale omkostninger til respiratorhjælp i hjemmet beløb sig i 2016 til cirka 1,3 mia. kr. årligt, og derudover er der ofte udgifter til hjælp og pleje efter servicelovens bestemmelser til patienter med respirationshjælp. På den baggrund er det MTV'ens formål at vurdere, hvordan de rette forudsætninger skabes for, at respiratorbehandling i eget hjem (med overvågning) tilbydes de rette patienter. Det undersøges, hvorledes respiratorbehandling i eget hjem mest hensigtsmæssigt kan organiseres, samt hvilke effekter og omkostninger HMV medfører. Formålet belyses i forhold til hovedområderne effekt, risici, patient- og pårørende-perspektiver, etiske forhold, organisering og økonomi. Denne rammesætning muliggør afdækning af udvalgte men centrale dele af behandlingsområdet, således at rapporten kan præsentere et opdateret evidensgrundlag. Der vil dog også være perspektiver, som ikke bliver belyst inden for disse rammer.

Nedenfor præsenteres de væsentligste resultater fra rapportens seks hovedområder:

- På baggrund af systematiske reviews og primære studier ses en nogenlunde konsistent fordel ved anvendelse af HMV, såfremt patienten er i stand til at tolerere behandling (studier omhandler særligt non-invasiv behandling og i mindre omfang invasiv behandling med trakeostomi). Effekthold er vurderet i forhold til mortalitet, livskvalitet, hospitalisering og lungefunktion. Resultater stammer primært fra studier, hvor alternativet til HMV-behandling reelt er ingen behandling, altså at patienten ikke modtager respirationsstøtte. Inden for visse patientgrupper, særligt patienter med svært reduceret eller ophørt vejrtrækning, er HMV sædvanligvis eneste alternativ. Resultater vedrørende effekthold i relation til HMV hviler på et meget svagt evidensgrundlag, hvilket til dels skyldes behandlingsområdets begrænsede muligheder for at opstille stærke studiedesigns, fx RCT. Det betyder, at tilliden til resultaterne generelt er meget lav.
- I forhold til risici ved HMV tyder de fundne resultater på, at trakeostomipatienter oplever flere komplikationer end patienter med non-invasiv behandling. Sammenligneligheden mellem de to grupper er dog tvivlsom, og tilliden til resultatet er meget lav. Blandt børn, der behandles non-

invasivt via maske, er beskrevet risici for hudskader og tryk/udfladning af ansigt. Igen hviler resultaterne på et meget begrænset evidensgrundlag. Der er kun fundet dokumentation for risici i meget begrænset omfang, og der vil være risici som ikke er belyst i denne del af undersøgelsen.

- På baggrund af et systematisk litteraturstudie af internationale, kvalitative studier er patient- og pårørendeperspektiver ved HMV blevet afdækket. *Patienterne* beskriver respiratorbehandling som en livreddende foranstaltning, samtidig med at de også kan have vanskeligt ved at forlige sig med deres tilværelse med HMV. Patienterne oplever på den ene side gradvist en følelse af kontrol med teknologien og på den anden side en fortsat usikkerhed, fordi de på grund af ændringer i deres helbredstilstand ofte skal tilpasse sig en ny situation. Det er afgørende for patienternes oplevelse af styrket livskvalitet ved HMV, at behandlingen finder sted i hjemmet frem for i institutionelle rammer. I forhold til samarbejde med sundhedsprofessionelle og personlige hjælpere understreger patienterne vigtigheden af en tilgang, hvor de lyttes til og bliver mødt som 'hele personer' og samarbejdspartnere. *Pårørende* (her primært til børn) beretter om en stressfyldt hverdag, hvor bekymring og angst for barnets fremtid 'fylder'. Det er en hverdag, som er præget af stram styring og alligevel stor uforudsigelighed. Forældre giver også udtryk for, at tilstedeværelse af hjælpere i hjemmet kan være en belastning.
- Hvordan etiske dilemmaer i relation til brugen af HMV anskues og søges løst afhænger af, om det er patienter, professionelle eller politisk-administrativt ansvarlige, der tager stilling til forholdet (fx prioritering af, hvilke patienter, der kan visiteres til HMV). Dette stiller store krav til politisk ansvarlige om at gøre de etiske dilemmaer ved HMV til genstand for offentlig diskussion. En sådan diskussion kan bl.a. styrkes ved at inddrage erfaringer med håndtering af prioriteringsproblemer på sundhedsområdet (som fx den autoritet man i England har givet NICE (National Institute of Clinical Excellence) eller det norske prioriteringsinstitut 'Nye Metoder' samt danske erfaringer fra Medicinrådet). Diskussion om etik i relation til brug af HMV kan i længden ikke adskilles fra en sådan mere generel samfundsetisk diskussion og stillingtagen.
- Respiratorbehandlingen kostede i 2015 og 2016 henholdsvis 1,26 og 1,32 mia. kr. på landsplan svarende til en vækst på ca. 4 %. I gennemsnit kostede respiratorbehandlingen per patient 1,5 mio. kr. i 2016. Analysen viser, at i forhold til indlæggelse på en intensivafdeling, er HMV et bedre økonomisk alternativ. Der er variation i gennemsnitsomkostninger per patient mellem regionerne. Årsagerne hertil er ukendte, men mulige forklaringer kan være variation i fordelingen af uaglærte/faglærte hjælpere i hjælperordninger, antal børnesager og forskelle i fordelingen af diagnoser mellem regionerne, samt ikke ensartede opgørelser i respirationscentre og regionerne. Der er på landsplan observeret en stigning i både prævalens og incidens af HMV-patienter over en femårs periode. Den organisatoriske analyse har fremlagt for-

slag til mulige organisatoriske ændringer, som kan have potentielle ressourcemæssige konsekvenser for anvendelsen af HMV. Det har imidlertid ikke været muligt at kvantificere disse forslag, og der er fortsat behov for mere forskning og viden på området, så de organisatoriske/økonomiske konsekvenser ved HMV kan blive belyst. Det har ikke været muligt at basere den økonomiske analyse på registerdata grundet tidsrammen for projektet.

- Resultater fra organisationsanalysen viser, at der på respirationscentrene opleves et øget pres fra henvisende afdelinger i forhold til visitation til HMV. For dels at modvirke, at der langsomt sker et indikationsskred i patientgruppen, uden man eksplicit har taget stilling til, om indikationsskredet er hensigtsmæssigt, og dels at sikre en større ensretning af praksis for henvisning til og igangsættelse af respiratorisk behandling, vurderes der således at være behov for politisk-administrativ opmærksomhed på at fastholde samt yderligere opdatere og præcisere beskrivelsen af målgruppen for HMV. Dette bør ske i samarbejde med de lægefaglige miljøer. Desuden findes et behov for at skærpe eksisterende nationale kriterier og retningslinjer for visitation, igangsættelse og tilrettelæggelse af behandling med inspiration fra foreliggende lokale og internationale kriterier og retningslinjer. Patientgruppens heterogenitet samt kompleksiteten i den samlede vurdering af patient og behandling skaber dog visse udfordringer ved at sætte kriterier for visitation og igangsættelse af behandling entydigt på formel. Angående henvisning til respirationscentrene vurderes der at være potentiale i at styrke dialogen mellem respirationscentrene og henvisende afdelinger forud for visitation af patienter, fx gennem etablering af ordninger med udgående læger fra respirationscentrene. Det er vigtigt, at igangsætning af HMV baseres på forudgående systematisk dialog med patienterne, herunder at eventuelle palliative medicinske alternativer til respiratorbehandling diskuteres, hvor det er relevant. Med henblik på at imødekomme udfordringer med sen udskrivning fra intensivafdelingerne samt brug af dyre midlertidige aflastningspladser og vikarbureauer ses der desuden potentiale i tidligt at inddrage patientens hjemkommune ved etablering af HMV. Tidlig inddragelse af hjemkommunen giver desuden mulighed for tidlig forventningsafstemning med patienten, hvilket forventes at kunne mindske igangsættelsen af hjælperordninger, som på forhånd vurderes at være udfordrende (uhensigtsmæssige) og dermed omkostningstunge. Med henblik på at imødekomme aktuelle udfordringer forbundet med hyppig udskiftning i hjælperordninger vurderes der et betydeligt potentiale i lokalt og på politisk-administrativt niveau at skabe bedre rammer for og regulering af hjælperordninger. Dette såvel i et økonomisk perspektiv som med henblik på at sikre en høj behandlingskvalitet.

Uddybende kommentarer

I denne MTV undersøges og vurderes anvendelse af respiratorbehandling i eget hjem (HMV) inden for en patientgruppe med kronisk respirationsinsufficiens/-svigt og behov for overvågning hele

eller det meste af døgnnet. Området har gennemgået en stor udvikling de senere år – der observeres en betydelig vækst i brugen af HMV, og nye patientgrupper kommer til.

Indledningsvis skal det understreges, at vi har med en meget bred patientgruppe at gøre med mere end 40 potentielle diagnoser, herunder underdiagnoser. Desuden ses meget forskellige progressionsforhold og forskelle i, hvor fremskreden sygdommen er. Endelig forekommer betydelig variation i tilbudte behandlingsformer. Samlet kan det medføre, at nogle af rapportens resultater og konklusioner kan fremstå noget overordnet og naturligvis, at ikke alle relevante perspektiver kan afdækkes.

Rapportens samlede resultater (særligt resultater præsenteret i kapitlerne vedrørende patient- og pårørendeperspektiver, etiske forhold, organisering og sundhedsøkonom) bidrager dog alligevel med perspektiver i forhold til, hvordan hensigtsmæssig visitationspraksis samt organisering af respiratorbehandling i eget hjem kan sikres for både patient, pårørende og fagprofessionelle i såvel primær som sekundær sektor.

Rapportens resultater peger på, at opmærksomhed på *henvisningspraksis* samt på *forberedelse* og *etablering* af forløb for HMV er helt central i forhold til at sikre en hensigtsmæssig visitation til og organisering af respiratorbehandling i eget hjem. Dette også i et sundhedsøkonomisk perspektiv. Respiratorbehandling i eget hjem er som beskrevet et behandlingsområde i vækst med store årlige omkostninger, omend væksten i antallet af hjælperordninger varierer mellem de fem regioner. Rapportens resultater giver ikke grundlag for at vurdere, om væksten er forventelig eller hensigtsmæssig, men organisationsanalysen viser et vurderet behov for politisk-administrativ opmærksomhed på i et samarbejde med de lægefaglige miljøer at fastholde samt yderligere opdatere og præcisere den eksisterende beskrivelse og afgrænsning af målgruppen for HMV. Dette med henblik på at modvirke, at der langsomt sker et indikationsskred, uden at man eksplicit har taget stilling til, om indikationsskredet er hensigtsmæssigt. Den regionale variation i behandlingsvæksten afdækker desuden en mulig forskel mellem regionerne i forhold til, om de samme patienter henvises til og tilbydes behandling. Organisationsanalysen peger her på, at en tydeliggørelse af målgruppen for HMV samt en skærpelse af eksisterende nationale kriterier og udvikling af retningslinjer for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af behandling har potentialer i forhold til at sikre en større ensretning af henvisningspraksissen på tværs af respirationscentrene og regionerne. Det er dog væsentligt at være opmærksom på, at der kan være udfordringer forbundet med at præcisere den eksisterende beskrivelse og afgrænsning af målgruppen for HMV, da der vil være en gruppe af potentielle patienter, som er vanskelige præcist at afgrænse. Desuden beror henvisning til respirationscentrene og igangsætning af HMV på en kompleks og multifaktoriel vurdering af patienten. Dette komplicerer at sætte kriterier og retningslinjer for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV entydigt på formel. Foruden skærpelse af beskrivelsen af mål-

gruppen samt udvikling af kriterier og retningslinjer viser organisationsanalysen i relation til visitationspraksis potentialer i på respirationscentre at styrke dialogen med henvisende afdelinger forud for visitation af patienter. Desuden vurderes i forhold til forberedelse og etablering af HMV potentialer i at sikre, at igangsætning af HMV baseres på en forudgående systematisk og grundig dialog og forventningsafstemning med patienterne, herunder også om palliative medicinske alternativer til respiratorbehandling er et muligt alternativ, samt i tidlig inddragelse af patienternes hjemkommune i forbindelse med etablering af HMV. De organisatoriske potentialer ses i forhold til at kvalificere beslutningstagen vedrørende henvisning til og igangsætning af respiratorisk behandling, at sikre tidlig forventningsafstemning med patienter om krav og forudsætninger for HMV samt imødekomme aktuelle udfordringer med sen udskrivning fra intensivafdelingerne til eget hjem, og brugen af midlertidige, dyre aflastningspladser og vikarbureauer. I relation hertil bemærkes i organisationsanalysen desuden botilbud uden for eget hjem som en mulig, gavnlig og rationel løsning for udvalgte patienter.

I et patientperspektiv beskrives HMV på den ene side som et vendepunkt i tilværelsen og som en livreddende foranstaltning, der forbedrer helbredstilstanden og øger livskvaliteten, mens det på den anden side ses som en konstant udfordring med tab af identitet og selvværd, og hvor angst og bekymring fylder. I forhold til etablering af forløb for HMV viser rapporten således, at forberedelsen af forløbet med respirator også er helt centralt i relation til patienten. Overordnet har forberedelse betydning for patientautonomi og selvbestemmelse, og blandt andet i forhold til ALS-patienter peger patientkapitlet på den baggrund på, at klinikere og patienter så tidligt som muligt i sygdomsforløbet bør diskutere forskellige mulige scenarier for sygdommens udvikling, herunder om og hvornår respiratorisk behandling skal igangsættes, og hvornår respiratorisk behandling eventuelt skal afsluttes. En sådan diskussion vurderes at have betydelige positive konsekvenser for patientens oplevelse af retten til at være selvbestemmende og deltagende i eget sygdomsforløb. Rapportens resultater viser, at forberedelsen og dialogen her ikke alene har betydning for patienten, men også understøtter praktiske forberedelser til et eventuelt behandlingsforløb. Desuden viser organisationsanalysen, at en sådan systematisk dialog og forventningsafstemning med patienterne forud for beslutning om igangsætning af HMV har potentialer i forhold til at fremme igangsætning af patientforløb med færre udfordringer og frustrationer for patienter og hjælperhold. På denne måde kan bidrages til at sikre, at mindre egnede behandlingsforløb, som på forhånd anslås at være udfordrende og dermed omkostningstunge, undgås.

Forskningsmæssigt er evidensgrundlaget præget af, at vi har med en meget sårbar patientgruppe at gøre. Det får i forskningsøjemed betydning for opstilling af forsøg og studiedesign i forbindelse med vurdering af effektforhold. Særligt behandlingskrav, etiske forhold og små populationer kan her hindre en stringent opbygning af et forsøg med fx randomisering, og ved kohortestudier kan det være svært at etablere et pålideligt sammenligningsgrundlag. Det kan via disse metodetilgan-

ge blive vanskeligt at udbygge vidensgrundlaget yderligere, og der er behov for at etablere viden på anden vis, blandt andet via journalgennemgange, surveys og interviewundersøgelser.

Behov for forskning/udvikling inden for området

- Der er fortsat behov for velgennemførte prospektive kohortestudier inden for relevante patientgrupper, og hvor der kan etableres et reelt og acceptabelt sammenligningsgrundlag/alternativ til behandling.
- Der er yderligere behov for at belyse effekt og risici ved HMV inden for forskellige patientgrupper og i forhold til invasiv og non-invasiv behandling. Metodetilgang skal særligt overvejes her med henblik på opsamling af erfaringer og viden fra organisationen.
- Der ønskes yderligere forskning med henblik på at opnå viden om og forståelse for familiernes vedvarende læringsprocesser, og hvordan det er knyttet til familiernes ressourcer samt støtte i hjemmet. Longitudinelle studier med anvendelse af observationer og interview anbefales. Endelig kunne det være værdifuldt med viden om patienter, som fravælger HMV.
- Der er behov for yderligere forskning indenfor en række etiske udfordringer og dilemmaer i relation til brugen af HMV. Der eksisterer betydelig viden om livsafslutningsscenarier for terminale patienter i hospitalssammenhæng, hvorimod der mangler dækkende viden om livsafslutningsanliggender og beslutningstagen, hvor det drejer sig om alvorligt syge mennesker, der benytter HMV. Der er behov for yderligere diskussion om muligheden for at formulere retningslinjer, der kan være til støtte ved håndteringen af etiske dilemmaer ved brugen af HMV.
- Der ønskes organisatorisk forskning, der gennem mere systematisk kobling mellem organisering og effekt bidrager med viden om konsekvenser ved og effekt af forskellige organiseringsmåder for visitation, igangsætning og tilrettelæggelse af HMV.
- Der mangler derfor fortsat mere viden og forskning på området, og der er et stort behov for mere transparent og ensrettet monitorering af området samt dataopgørelser, blandt andet for at styrke sammenligningsgrundlaget nationalt og internationalt.
- Der er særligt behov for at udbrede kendskabet til henvisningskriterier/visitation af patienter til videre udredning for behov for HMV.
- Der bør arbejdes hen imod mere klare retningslinjer og ensartede procedurer, særligt i forhold til opsamling af registerdata (diagnoser) og omkostningsopgørelser med henblik på bedre sammenlignelighed på tværs af regioner og respirationscentre.

Referencer

- (1) Brurberg KG, Landmark B, Kirkehei I, Reinart LM. Effekt av langtids mekanisk ventilering (LTMV) del 1 - nevrologisk sykdom eller svikt i sentral respirasjonsstyring. Oslo: Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten, 2012.
- (2) Brochard L. Mechanical ventilation: invasive versus noninvasive. Eur Respir J Suppl 2003;47:31-7.
- (3) Bach JR, Rajaraman R, Ballanger F, Tzeng AC, Ishikawa Y, Kulesa R et al. Neuromuscular ventilatory insufficiency: effect of home mechanical ventilator use v oxygen therapy on pneumonia and hospitalization rates. Am J Phys Med Rehabil 1998;77(1):8-19.
- (4) Rabec C, Rodenstein D, Leger P, Rouault S, Perrin C, Gonzalez-Bermejo J et al. Ventilator modes and settings during non-invasive ventilation: effects on respiratory events and implications for their identification. Thorax 2011;66(2):170-8.
- (5) Theerakittikul T, Ricarte B, Aboussouan LS. Noninvasive positive pressure ventilation for stable outpatients: CPAP and beyond. Cleve Clin J Med 2010;77(10):705-14.
- (6) Sundhedsstyrelsen. Kronisk respirationsinsufficiens som følge af neuromuskulære lidelser, thoraxdeformiteter mv. - tilrettelæggelse af behandling. København: Sundhedsstyrelsen, 2012.
- (7) Bladbjerg E, Sandbæk A, Stallknecht BM. Sygdomslære for ikke-klinikere. 1. udgave ed. København: Munksgaard, 2012.
- (8) Maragakis N, Galvez-Jimenez N. Epidemiology and pathogenesis of amyotrophic lateral sclerosis. Waltham: UpToDate, 2009.
- (9) Elman L, McCluskey L. Clinical features of amyotrophic lateral sclerosis and other forms of motor neuron disease. JM Shefner, Dashe, JF, eds. Waltham: UpToDate, 2012.
- (10) Czapinski A, Yen AA, Appel SH. Amyotrophic lateral sclerosis: early predictors of prolonged survival. J Neurol 2006;253(11):1428-1436.
- (11) Gundersen MD, Yaseen R, Midgard R. Incidence and clinical features of amyotrophic lateral sclerosis in More and Romsdal County, Norway. Neuroepidemiology 2011;37(1):58-63.
- (12) Darras BT, Patterson MC, Dashe JF. Clinical features and diagnosis of Duchenne and Becker muscular dystrophy. Waltham: UpToDate, 2010.
- (13) Hjerneskeforeningen. Hjernesker i tal. Available at: <https://hjernesket.dk/om-hjernesker/tal-og-fakta-om-hjernesker/>. Accessed April/05, 2017.
- (14) Radunovic A, Annane D, Jewitt K, Mustfa N. Mechanical ventilation for amyotrophic lateral sclerosis/motor neuron disease. Cochrane Database Syst Rev 2009;(4):CD004427.

- (15) Geiseler J, Karg O, Borger S, Becker K, Zimolong A. Invasive home mechanical ventilation, mainly focused on neuromuscular disorders. *GMS Health Technol Assess* 2010;6:Doc08.
- (16) McKim DA, Road J, Avendano M, Abdool S, Cote F, Duguid N et al. Home mechanical ventilation: a Canadian Thoracic Society clinical practice guideline. *Can Respir J*. 2011;18(4):197-215.
- (17) Hull J, Aniapravan R, Chan E, Chatwin M, Forton J, Gallagher J et al. British Thoracic Society guideline for respiratory management of children with neuromuscular weakness. *Thorax* 2012;67 Suppl 1:i1-40.
- (18) Andersen PM, Abrahams S, Borasio GD, de Carvalho M, Chio A, Van Damme P et al. EFNS guidelines on the clinical management of amyotrophic lateral sclerosis (MALS)--revised report of an EFNS task force. *Eur J Neurol*. 2012;19(3):360-75.
- (19) Hannan LM, Dominelli GS, Chen YW, Darlene Reid W, Road J. Systematic review of non-invasive positive pressure ventilation for chronic respiratory failure. *Respir Med* 2014;108(2):229-43.
- (20) MacIntyre EJ, Asadi L, Mckim DA, Bagshaw SM. Clinical Outcomes Associated with Home Mechanical Ventilation: A Systematic Review. *Can Respir J* 2016;2016:6547180.
- (21) Vrijsen B, Testelmans D, Belge C, Robberecht W, Van Damme P, Buyse B. Non-invasive ventilation in amyotrophic lateral sclerosis. *Amyotroph Lateral Scler Frontotemporal Degener* 2013;14(2):85-95.
- (22) Bourke SC, Tomlinson M, Williams TL, Bullock RE, Shaw PJ, Gibson GJ. Effects of non-invasive ventilation on survival and quality of life in patients with amyotrophic lateral sclerosis: a randomised controlled trial. *Lancet Neurol* 2006;5(2):140-7.
- (23) Jeppesen J, Green A, Steffensen BF, Rahbek J. The Duchenne muscular dystrophy population in Denmark, 1977-2001: prevalence, incidence and survival in relation to the introduction of ventilator use. *Neuromuscul Disord* 2003;13(10):804-12.
- (24) Raphael JC, Chevret S, Chastang C, Bouvet F. Randomised trial of preventive nasal ventilation in Duchenne muscular dystrophy. French Multicentre Cooperative Group on Home Mechanical Ventilation Assistance in Duchenne de Boulogne Muscular Dystrophy. *Lancet* 1994;343(8913):1600-4.
- (25) Dreyer P, Lorenzen CK, Schou L, Felding M. Survival in ALS with home mechanical ventilation non-invasively and invasively: a 15-year cohort study in west Denmark. *Amyotroph Lateral Scler Frontotemporal Degener* 2014;15(1-2):62-7.
- (26) Hazenberg A, Kerstjens HAM, Prins SCL, Vermeulen KM, Wijkstra PJ. Is chronic ventilatory support really effective in patients with amyotrophic lateral sclerosis? *J Neurol* 2016;263(12):2456-61.

- (27) Hazenberg A, Kerstjens HAM, Prins SCL, Vermeulen KM, Wijkstra PJ. Initiation of home mechanical ventilation at home: a randomised controlled trial of efficacy, feasibility and costs. *Respir Med* 2014;108(9):1387-95.
- (28) Kherani T, Sayal A, Al-Saleh S, Sayal P, Amin R. A comparison of invasive and noninvasive ventilation in children less than 1 year of age: A long-term follow-up study. *Pediatr Pulmonol* 2016;51(2):189-95.
- (29) Kun SS, Edwards JD, Ward SL, Keens TG. Hospital readmissions for newly discharged home mechanical ventilator pediatric patients. *Pediatr Pulmonol* 2012;47(4):409-14.
- (30) Sanjuan-Lopez P, Valino-Lopez P, Ricoy-Gabaldon J, Vereas-Hernando H. Amyotrophic lateral sclerosis: impact of pulmonary follow-up and mechanical ventilation on survival. A study of 114 cases. *Arch Bronconeumol* 2014;50(12):509-13.
- (31) Spataro R, Bono VF, Marchese S, La Bella V. Tracheostomy mechanical ventilation in patients with amyotrophic lateral sclerosis: clinical features and survival analysis. *J Neurol Sci* 2012;323(1-2):66-70.
- (32) Fernandez Alvarez R, Rubinos Cuadrado G, Rodriguez Jerez F, Garcia Garcia A, Rodriguez Menendez P, Casan Clara P. Home mechanical ventilation through mask: monitoring leakage and nocturnal oxygenation at home. *Respiration* 2013;85(2):132-6.
- (33) Yang L, Nonoyama M, Pizzuti R, Bwititi P, John G. Home mechanical ventilation: A retrospective review of safety incidents using the World Health Organization International Patient Safety Event classification. *Can J Respir Ther* 2016;52(3):85-91.
- (34) Lofaso F, Prigent H, Tiffreau V, Menoury N, Toussaint M, Monnier AF et al. Long-term mechanical ventilation equipment for neuromuscular patients: meeting the expectations of patients and prescribers. *Respir Care* 2014;59(1):97-106.
- (35) Ballangrud R, Bogsti WB, Johansson IS. Clients' experiences of living at home with a mechanical ventilator. *J Adv Nurs* 2009;65(2):425-34.
- (36) Briscoe WP, Woodgate RL. Sustaining self: the lived experience of transition to long-term ventilation. *Qual Health Res* 2010;20(1):57-67.
- (37) Lindahl B, Sandman P, Rasmussen BH. On being dependent on home mechanical ventilation: depictions of patients' experiences over time. *Qual Health Res* 2006;16(7):881-901.
- (38) Lindahl B. Patients' suggestions about how to make life at home easier when dependent on ventilator treatment--a secondary analysis. *Scand J Caring Sci* 2010;24(4):684-92.
- (39) Dybwik K, Tollali T, Nielsen EW, Brinchmann BS. "Fighting the system": families caring for ventilator-dependent children and adults with complex health care needs at home. *BMC Health Serv Res* 2011;11:156.
- (40) Dyrstad DN, Hansen BS, Gundersen EM. Factors that influence user satisfaction: tracheotomised home mechanical ventilation users' experiences. *J Clin Nurs* 2013;22(3-4):331-8.

- (41) Sundling I, Ekman S, Weinberg J, Klefbeck B. Patients' with ALS and caregivers' experiences of non-invasive home ventilation. *Adv Physiother* 2009;11(3):114-20.
- (42) Lindahl B, Lindblad BM. Family members' experiences of everyday life when a child is dependent on a ventilator: a metasynthesis study. *J Fam Nurs* 2011;17(2):241-69.
- (43) Lindahl B, Lindblad BM. Being the parent of a ventilator-assisted child: perceptions of the family-health care provider relationship when care is offered in the family home. *J Fam Nurs* 2013;19(4):489-508.
- (44) Mah JK, Thannhauser JE, McNeil DA, Dewey D. Being the lifeline: The parent experience of caring for a child with neuromuscular disease on home mechanical ventilation. *Neuromuscul Disord* 2008;18(12):983-8.
- (45) Dreyer PS, Steffensen BF, Pedersen BD. Life with home mechanical ventilation for young men with Duchenne muscular dystrophy. *J Adv Nurs* 2010;66(4):753-62.
- (46) Ando H, Williams C, Angus RM, Thornton EW, Chakrabarti B, Cousins R et al. Why don't they accept non-invasive ventilation?: insight into the interpersonal perspectives of patients with motor neurone disease. *Br J Health Psychol* 2015;20(2):341-59.
- (47) Rul B, Carnevale FF, Estournet BF, Rudler MF, Herve C. Tracheotomy and children with spinal muscular atrophy type 1: ethical considerations in the French context. *Nurs Ethics* 2012;19(3):408-18.
- (48) Dybwik K, Nielsen EW, Brinchmann BS. Ethical challenges in home mechanical ventilation: a secondary analysis. *Nurs Ethics* 2012;19(2):233-44.
- (49) Skadborg M JU. Ethiske overvejelser i forbindelse med hjemmerespiratorbehandling af mennesker med kronisk respirationsinsufficiens. *Bibliotek for læger* 2014;206:64.
- (50) McCluskey L. Amyotrophic Lateral Sclerosis: ethical issues from diagnosis to end of life. *NeuroRehabilitation* 2007;22(6):463-72.
- (51) Windisch W. Home mechanical ventilation: who cares about how patients die? *Eur Respir J* 2010;35(5):955-7.
- (52) Eng D. Management guidelines for motor neurone disease patients on non-invasive ventilation at home. *Palliat Med* 2006;20(2):69-79.
- (53) Greene JC. Is mixed methods social inquiry a distinctive methodology? *J Mix Methods Res* 2008;2(1):7-22.
- (54) Halkier B. Fokusgrupper. 3. udgave ed. Frederiksberg: Samfundslitteratur, 2016.
- (55) Järvinen M, Mik-Meyer N eds. Kvalitative metoder i et interaktionistisk perspektiv : interview, observationer og dokumenter. 1. udgave ed. København: Hans Reitzel, 2005.

- (56) Kvale S, Brinkmann S. Interview : introduktion til et håndværk. 2. udgave. København: Hans Reitzel, 2009.
- (57) National Clinical Guideline Centre (UK). Motor neurone disease: assessment and management. London: National Institute for Health and Care Excellence (UK), 2016 Feb.
- (58) Miller RG, Jackson CE, Kasarskis EJ, England JD, Forshew D, Johnston W et al. Practice parameter update: The care of the patient with amyotrophic lateral sclerosis: drug, nutritional, and respiratory therapies (an evidence-based review): report of the Quality Standards Subcommittee of the American Academy of Neurology. *Neurology* 2009;73(15):1218-26.
- (59) Sterni LM, Collaco JM, Baker CD, Carroll JL, Sharma GD, Brozek JL et al. An Official American Thoracic Society Clinical Practice Guideline: Pediatric Chronic Home Invasive Ventilation. *Am J Respir Crit Care Med* 2016;193(8):e16-35.
- (60) Windisch W, Waltersbacher S, Siemon K, Geiseler J, Sitter H. Guidelines for non-invasive and invasive mechanical ventilation for treatment of chronic respiratory failure. Published by the German Society for Pneumology (DGP). *Pneumologie* 2010;64(10):640-52.
- (61) Ambrosino N, Vitacca M, Dreher M, Isetta V, Montserrat JM, Tonia T et al. Tele-monitoring of ventilator-dependent patients: a European Respiratory Society Statement. *Eur Respir J* 2016;48(3):648-63.
- (62) Vitacca M, Bianchi L, Guerra A, Fracchia C, Spanevello A, Balbi B et al. Tele-assistance in chronic respiratory failure patients: a randomised clinical trial. *Eur Respir J* 2009;33(2):411-418.
- (63) Dybwik K, Nielsen EW, Brinchmann BS. Home mechanical ventilation and specialised health care in the community: Between a rock and a hard place. *BMC Health Serv Res* 2011;11:115.
- (64) Israelsson-Skogsberg A, Lindahl B. Personal care assistants' experiences of caring for people on home mechanical ventilation. *Scand J Caring Sci* 2016;31(1):27-36.
- (65) Lewarski JS, Gay PC. Current issues in home mechanical ventilation. *Chest* 2007;132(2):671-6.
- (66) Maddox C, Pontin D. Paid carers' experiences of caring for mechanically ventilated children at home: Implications for services and training. *J Child Health Care* 2013;17(2):153-63.
- (67) Rose L, McKim DA, Katz SL, Leasa D, Nonoyama M, Pedersen C et al. Home mechanical ventilation in Canada: a national survey. *Respir Care* 2015;60(5):695-704.
- (68) Swedberg L, Michelsen H, Chiriac EH, Hylander I. On-the-job training makes the difference: healthcare assistants' perceived competence and responsibility in the care of patients with home mechanical ventilation. *Scand J Caring Sci* 2015;29(2):369-78.
- (69) Graf JM, Montagnino BA, Hueckel R, McPherson ML. Pediatric tracheostomies: A recent experience from one academic center. *Pediatr Crit Care Med* 2008;9(1):96-100.

- (70) Hanashiro M, Franco AOC, Ferraro AA, Troster EJ. Care alternatives for pediatric chronic mechanical ventilation. *J Pediatr (Rio J)* 2011;87(2):145-9.
- (71) Hazenberg A, Kerstjens HAM, Prins SCL, Vermeulen KM, Wijkstra PJ. Initiation of chronic ventilatory support at home, by using telemonitoring, is effective and saves costs. *Respir Med* 2014;108(9):1387-95.
- (72) Laakso K, Markström A, Hartelius L. Communication and quality of life in individuals receiving home mechanical ventilation. *Iny J Ther Rehabil* 2009;16(12):648-58.
- (73) Rie MA. Long-term mechanical ventilation: Costs, consequences, and accountability for access disparities. *Crit Care Med* 2012;40(4):1351-2.
- (74) Pallero M, Puy C, Güell R, Pontes C, Martí S, Torres F et al. Ambulatory adaption to noninvasive ventilation in restrictive pulmonary disease: A randomized trial with cost assessment. *Respir Med* 2014;108:1014-1022.
- (75) Hazenberg A, Kerstjens HAM, Prins SCL, Vermeulen KM, Wijkstra PJ. Initiation of chronic ventilatory support at home, by using telemonitoring, is effective and saves costs. *Eur Resp J* 2014;44 (Suppl 58) 4869.
- (76) Noyes J, Godfrey C, Beecham J. Ressource use and service costs for ventilator-dependent children and young people in the UK. *Health Soc Care Community* 2006;14(6):508-22.
- (77) Hanashiro M, Franco AOC, Ferraro AA, Troster EJ. Care alternatives for pediatric chronic mechanical ventilation. *J Pediatr (Rio J)* 2011;87(2):145-9.
- (78) Laakso K, Markström A, Hartelius L. Communication and quality of life in individuals receiving home mechanical ventilation. *Int J Ther Rehabil* 2009;16(12):648-658.
- (79) Abildgaard MK. Redegørelse for årsresultatet 2014 på Hjemmerespiratorområdet. Aarhus: Aarhus Universitetshospital, Region Midtjylland, 2015.
- (80) Arian S, Heinesen E. Notat vedrørende patienter i behandling med respirator i eget hjem. Aarhus: Respirationscenter Vest, Region Midtjylland, 2016.
- (81) Arian S. Redegørelse for årsresultat 2015 for Respiratorbehandling i eget hjem/Region Nordjylland. Aarhus: Aarhus Universitetshospital, Region Midtjylland, 2016.
- (82) Arian S. Redegørelse for årsresultatet 2015 på Hjemmerespirationsområdet. Aarhus: Aarhus Universitetshospital, Region Midtjylland, 2016.
- (83) Arian S. Redegørelse for årsresultat 2016 for Respiratorbehandling i eget hjem/Region Nordjylland. Aarhus: Aarhus Universitetshospital, Region Midtjylland, 2017.
- (84) Arian S. Redegørelse for årsresultatet 2016 på Hjemmerespirationsområdet. Aarhus: Aarhus Universitetshospital, Region Midtjylland, 2017.

(85) Christiansen MH. Redegørelse for årsresultatet 2011 på Hjemmerespiratorområdet. Aarhus: Aarhus Universitetshospital, Region Midtjylland, 2012.

(86) Christiansen MH. Notat om patientflow og opfølgning, kapacitet, ventetider og ventelister vedr. oplæringsforløb på Respirationscenter Vest. Viborg: Koncern Økonomi, Region Midtjylland, 2013.

(87) Edvardsen K. Model for hjemtrækning af højt specialiseret behandling – budget 2012. Region Syddanmark, 2011;11/7971.

(88) Sundhedsstyrelsen. Para- og tetraplegi - Organisation af behandling og kontrol. København: Sundhedsstyrelsen, 1994.

(89) Muskelsvindfonden. Om muskelsvind - Hvad er muskelsvind? Available at: <https://muskelsvindfonden.dk/om-muskelsvind/hvad-er-muskelsvind/>. Accessed 04/03, 2017.

Bilag

Bilag 1

Søgestrategi vedrørende medicinsk teknologivurdering af respiratorbehandling i eget hjem

Formål med projektet

Projektets overordnede formål er at belyse visitationskriterier nationalt og internationalt for anvendelse af respiratorbehandling i hjemmet. Desuden ønskes kliniske effektforhold ved respiratorbehandling undersøgt over for relevante alternative behandlingstiltag/måder at organisere forløbet på, ligesom overordnede patientrelaterede og etiske konsekvenser ønskes vurderet. Endvidere ønskes en afdækning af aktuel national organisering af respiratorbehandling i hjemmet (blandt andet i forhold til henvisningspraksis og brug af hjælperordninger), af udfordringer og muligheder i aktuel henvisningspraksis og organisering samt konsekvenser ved ændret praksis og organisering. Endelig ønskes omkostningsforhold ved behandlingen undersøgt, herunder brug af hjælperordninger, med henblik på hensigtsmæssig udnyttelse af ressourcer.

Patientgruppen kan ikke afgrænses præcist, men omfatter alle relevante patientgrupper med kronisk respirationsinsufficiens med behov for invasiv eller non-invasiv respiratorbehandling i eget hjem (fx patienter med ALS, muskelsvind, senhjerneskrade eller tetraplegi). Der afgrænses til patienter med behov for døgnovervågning eller overvågning i en betydelig del af døgnet.

Den fælles tilstand for patienterne er kronisk respirationsinsufficiens.

Respiratorbehandling i hjemmet sammenlignes med anden relevant behandling/praksis (som omfatter: især muligheder for at omorganisere forløbet med hensyn til fx hjælperordning, men også fx udsættelse af behandling, anden respiratorbehandling, palliativ behandling, botilbud og forløb forudgået af øget fokus på sygdomsindsigt/behandlingsmuligheder).

Der ønskes en systematisk opsummering af effektforhold i relation til de primære effektmål:

Mortalitet, Morbiditet, Livskvalitet og Komplikationer

Hensigten med søgningen er i relevante databaser at indsamle referencer, der beskæftiger sig med disse effektforhold. Søgning er afgrænset via PICO-strukturen. Der søges/afgrænses ikke indledningsvis på *sammenligningsgrundlag og effektmål*.

Søgningen er opdelt i fire delsøgninger. Under hver søgning er opstillet blokke, inden for hvilke søgeord er kombineret med 'OR'. De enkelte blokke kombineres med 'AND'.

Søgning 1: Domæne 3 (safety) og domæne 4 (effectiveness)

Blok 1 - intervention	Blok 2 – patient. Medtages kun ved mange hits
Home mechanical ventilation	Respiratory insufficiency
Home mechanical ventilator	Respiratory disorder
Domiciliary ventilation	Ventilated patients
Ventilation at home	
Ventilator support at home.	
Long term mechanical ventilation	
"Technology dependent children"	
HMV	

Søgning 2: Domæne 5 (economy)

Blok 1 - intervention	Blok 3 - economy
Home mechanical ventilation	Cost effectiveness
Home mechanical ventilator	Cost study
Domiciliary ventilation	Cost benefit analysis
Ventilation at home	Cost estimate
ventilator support at home.	Cost utility
Long term mechanical ventilation	Economic evaluation
"Technology dependent children"	
HMV	

Søgning 3: Domæne 7 (organisation)

Blok 1 - intervention	Blok 4 - organisation
Home mechanical ventilation	Organisation/Organising
Home mechanical ventilator	Organisational barriers
Domiciliary ventilation	Management
Ventilation at home	Care pathways/work processes
Ventilator support at home.	Qualifications/Training/Education
Long term mechanical ventilation	Care team/professional care
"Technology dependent children"	Clinical guidelines
HMV	Visitation

Søgning 4: Domæne 8 (patient) og domæne 6 (ethical aspect)

Blok 1 - intervention	Blok 5 - patient/ethics
Home mechanical ventilation	Behavior and Behavior Mechanisms
Home mechanical ventilator	Attitude to health
Domiciliary ventilation	Experiences
Ventilation at home	Assisted living
Ventilator support at home.	Patient perspectives?
Long term mechanical ventilation	Burden of caregivers (eller: caregivers burden)
"Technology dependent children"	Decision making process
HMV	Patient autonomy
	Patient experience
	Quality of life
	Ethical challenges
	Justice
	Ethics
	Ethical

Overordnet afgrænsning for søgning

Aldersgruppe: Ingen

Tid: 2006 - nu (til december 2016)

Sammenligningsgrundlag og effektmål: Ingen

Sprog: Engelsk, dansk, norsk og svensk

Studiedesign: Søgningen skal afgrænses til kvalitative forskningsstudier, case-kontrol-studier, kohortestudier, RCT-studier og systematiske reviews (herunder Cochrane-reviews, evidensbase-rede retningslinjer og MTV-rapporter).

Bilag 2

Oversigt over informanter

Region Hovedstaden		Region Sjælland		Region Syddanmark		Region Midtjylland		Region Nordjylland	
Leder af Regionsfunktion for hjemmerespiratorordninger, Primær Sundhed		Funktionschef i Primær Sundhed		Programchef i Tværsektorielt samarbejde		AC-fuldmægtig i Sundhedsplanlægning		Fuldmægtig i Økonomi – Regnskabsservice	
201 hjemmerespiratorordninger, heraf er 49 børn		116 hjemmerespiratorordninger, heraf er 23 børn		Ca. 165 hjemmerespiratorordninger, heraf er 13 børn		161 hjemmerespiratorordninger, heraf er 16 børn		62 hjemmerespiratorordninger, heraf er 12 børn	
Frederiksberg Kommune	Egedal Kommune	Næstved Kommune	Slagelse Kommune	Odense Kommune	Vejle Kommune	Aarhus Kommune	Herning Kommune	Aalborg Kommune	Hjørring Kommune
Faglig konsulent i Sundheds- og Omsorgsafdelingen	Socialfaglig konsulent i Sundheds- og Omsorgsafdelingen	Visitor i Center for Sundhed og Ældre	Konsulent i Center for Handicap og Psykiatri og leder af visitationen i Center for Sundhed og Ældre	Konsulent i Ældre- og Handicapforvaltningen	Visitor i Myndighedsafdelingen, Velfærdsforvaltningen	Konsulent i Magistrat for Sundhed og Omsorg	Visitor i Visitationsenheden, Sundhed og Ældre	Planlægnings- og udviklingskonsulent, Myndighedssekretariatet i Ældre- og Handicapforvaltningen	Afdelingsleder
10 hjemme-respiratorordninger	5 hjemme-respiratorordninger	4 hjemme-respiratorordninger	5 hjemme-respiratorordninger, heraf 1 barn	37 hjemme-respiratorordninger, heraf 4 børn	10 hjemme-respiratorordninger	56 hjemme-respiratorordninger, heraf 4 børn	13 hjemme-respiratorordninger	19 hjemme-respiratorordninger	10 hjemme-respiratorordninger

Bilag 3

Interviewguide – Respirationscentre

Aktuel organisering

Kan du beskrive, hvordan visitation af patienter til hjemmerespiratorordning foregår? (hvor henvisning fra, hvordan forløber vurdering og baseret på hvad, fx retningslinjer, beslutningsprocesser, fx hvem beslutter).

Hvilke alternativer findes til hjemmerespiratorordning? (hvordan vurderes hvilket tilbud, som er mest relevant).

Kan du beskrive overordnet patientforløbet fra beslutning om hjemmerespiratorordning er taget til denne er etableret? (hvilke delprocesser, tidsperspektiv).

Varierer beslutningsprocesser og forløb mellem forskellige typer af patienter? (fx børn versus voksne, planlagte versus akutte).

Hvilken rolle spiller respirationscentret i patientforløb, når patienten er udskrevet til hjemmerespiratorordning? (opfølgning, hotline, afslutning).

Hvordan adskiller organisering af respiratorbehandling i Region Midtjylland sig fra de øvrige regioner?

Samarbejde

Kan du helt overordnet beskrive, hvordan organisering af hjemmerespiratorbehandling ser ud i Region Midtjylland?

Hvordan ser samarbejde med region og kommuner ud for hjemmerespiratorbehandling? (Hvilke aktører spiller ind? hvad samarbejdes om? ansvarsfordeling og opgaver, ressourcer, timer).

Fx beskriv et patientforløb i forhold til afklaring og samarbejde med involverede parter (fastlæggelse af hjælperordning osv.).

Hvad er respirationscentrets rolle i samarbejdet?

Er der etableret strukturer eller initiativer, som faciliterer samarbejdet? (fora hvori man mødes, samarbejdsaftaler, retningslinjer).

Foregår der sparring og/eller samarbejde med de øvrige respirationscentre? (fx tidligere formaliseret samarbejde mellem syd og øst).

Hvordan opleves samarbejdet med region og kommuner?

Hjælperordninger

Hvilke typer af hjælperordninger findes?

Hvordan er organiseringen af hjælperordninger reguleret?

Hvordan træffes beslutninger om sammensætning og organisering af hjælperteams? (behov, antal hjælpere, timer, finansiering).

Er der forskel mellem forskellige typer af patienter?

Hvad er respirationscentrets rolle/opgave i forhold til etablering og organisering af hjælperordningen?

Hvordan foregår uddannelse af hjælperteams? (hvem uddanner, hvad består uddannelsen i, hvem finansierer uddannelse, hvor ofte tilbydes uddannelsesforløb, forskelle mellem patienttyper).

Hvilke kvalifikationer skal sikres? og hvilke forudsætninger skal være til stede hos hjælperen?

Er der retningslinjer/procedurer for oplæring? Hvilke? Et bestemt forløb eller program? Oplæring af samlede hjælperteams?

Ved udskiftning af hjælpere, hvordan udvælges og uddannes nye hjælpere? (herunder hvor ofte sker udskiftning).

Hvilke udfordringer oplever I i forhold til uddannelse?

Kvalitetssikring og monitorering

Hvordan foregår løbende monitorering og kvalitetssikring af patientforløb og hjemmerespiratorordning?

Hvordan foregår kvalitetssikring af uddannelse af hjælpere?

Hvem er ansvarlig for monitorering og kvalitetssikring? (fx lægefagligt ansvar hos centrene).

Findes der retningslinjer eller kvalitetsstandarder for hjemmerespiratorbehandling?

Vurdering og fremadrettet organisering

Hvilke udfordringer og potentialer ser du ved anvendelsen af hjemmerespiratorbehandling? (ventetider, kvalitet i hjælperteams, samarbejde med kommuner og region).

Hvilke alternative organiseringsmuligheder ser du for patientgruppen? (fx palliation eller institution).

Hvad tænker du er den mest hensigtsmæssige måde at organisere respiratorbehandling på? Herunder: er hjemmerespiratorbehandling altid det oplagte valg?

Bilag 4

Interviewguide – Regioner

Baggrund

Hvor mange hjemmerespiratorordninger har I aktuelt i Region xx?

Hvordan fordeler hjemmerespiratorordningerne sig på typer af patienter? (fx i forhold til børn/voksne, forskellige patientgrupper).

Organisering og samarbejde

Hvordan er hjemmerespiratorbehandling overordnet organiseret i Regionen? (fx i forhold til organisatorisk forankring, ansvarsfordeling, beslutningsprocesser).

Hvordan ser samarbejdet ud med kommunerne i regionen og Respirationscenter xx omkring hjemmerespiratorbehandling? (fx i forhold til ansvarsfordeling, opgaver der samarbejdes om, resourceforbrug, tag evt. udgangspunkt i et konkret patientforløb).

Hvilken rolle spiller I som region i patientforløb for patienter med hjemmerespiratorordning? (fx i forhold til visitation til og igangsættelse af forløb, etablering af hjælpeperteam, koordinering af behandlings- og plejeopgaver, løbende opfølgning og evt. afslutning af forløb).

Findes der organisatoriske strukturer, som understøtter samarbejdet mellem region, kommuner og respirationscenter? (fx for hvor man mødes, samarbejdsaftaler, retningslinjer).

Foregår der sparring og/eller samarbejde på tværs af regioner?

Hvordan foregår løbende monitorering og kvalitetssikring af patientforløb med hjemmerespiratorordning?

Hjælperordninger

Hvilke typer af hjælperordninger findes? (variation mellem patienttyper, planlagte versus akutte forløb, BPA-ordninger).

Hvordan træffes beslutninger om sammensætning og organisering af hjælperordning? (fx i forhold til behov, antal hjælpere, timer, finansiering).

Hvordan er organiseringen af hjælperordninger reguleret? (fx i retningslinjer, aftaler).

Organisatoriske udfordringer

Hvilke udfordringer ser du ved anvendelse af hjemmerespiratorbehandling i forhold til at optimere ressourceanvendelse?

Bilag 5

Interviewguide - Kommuner

Baggrund

Hvor mange hjemmerespiratorordninger har I aktuelt i xx Kommune?

Hvordan fordeler hjemmerespiratorordningerne sig på typer af patienter? (fx i forhold til børn/voksne, forskellige patientgrupper).

Organisering og samarbejde

Hvordan er hjemmerespiratorbehandling overordnet organiseret i xx Kommune? (fx i forhold til organisatorisk forankring, ansvarsfordeling, beslutningsprocesser).

Hvordan ser samarbejdet ud med Region xx og Respirationscenter xx omkring hjemmerespiratorbehandling? (fx i forhold til ansvarsfordeling, opgaver der samarbejdes om, ressourceforbrug, tag evt. udgangspunkt i et konkret patientforløb).

Hvilken rolle spiller I som kommune i patientforløb for patienter med hjemmerespiratorordning? (fx i forhold til visitation til og igangsættelse af forløb, etablering af hjælpeperteam, koordinering af behandlings- og plejeopgaver, løbende opfølgning og evt. afslutning af forløb).

Findes der organisatoriske strukturer, som understøtter samarbejdet mellem region, kommuner og respirationscenter i Region xx? (fx fora hvori man mødes, samarbejdsaftaler, retningslinjer).

Foregår der sparring og/eller samarbejde på tværs af kommuner inden for og/eller mellem regioner?

Hvordan foregår løbende monitorering og kvalitetssikring af patientforløb med hjemmerespiratorordning?

Hjælperordninger

Hvilke typer af hjælperordninger findes? (variation mellem patienttyper, planlagte versus akutte forløb, BPA-ordninger).

Hvordan træffes beslutninger om sammensætning og organisering af hjælperordning? (fx i forhold til behov, antal hjælpere, timer, finansiering).

Hvordan er organiseringen af hjælperordninger reguleret? (fx i retningslinjer, aftaler).

Organisatoriske udfordringer

Hvilke udfordringer ser du ved anvendelse af hjemmerespiratorbehandling i forhold til at optimere ressourceanvendelse?

Bilag 6

Interviewguide – Fokusgrupper

Udfordringer og muligheder i aktuel organisering

Hvilke udfordringer kan identificeres i den nuværende visitationspraksis og organisering af respiratorbehandling i eget hjem?

Hvad fungerer godt i den aktuelle måde at håndtere og organisere respiratorbehandling i eget hjem?

Fremadrettet organisering

Hvilke forslag til ændringer/forbedringer har I i forhold til visitation til og organisering af respiratorbehandling i eget hjem?

Hvad fordres i forhold til disse ændringer/forbedringer? (fx hvad stiller det af krav til ressourcer, kompetencer mv.).

På hvilke niveauer hører beslutningstagen i forhold til ændring/forbedring af organisering af respiratorbehandling i eget hjem?

Er der faldgruber man skal være opmærksomme på i forhold til ændring af organiseringsmåden?

Bilag 7

Inkluderede studiers karakteristika og kvalitet – Organisation

Studier (forfatter, år, land)	Formål	Studiedesign/Metode	Population/Empirisk grundlag	Resultater	Kommentarer/Kvalitet
Ambrosino et al., 2016, Italien	At tilvejebringe viden vedrørende indikationer, followup, planlægning, udstyr og faciliteter samt juridiske aspekter knyttet til anvendelse af telemonitorering i forbindelse med HMV. Dette med henblik på udvikling af kliniske guidelines for området i kontekster, hvor telemonitorering allerede er i anvendelse samt bidrage til udvikling af modeller for telemonitorering i kontekster, hvor dette endnu ikke forekommer.	Task force-rapport baseret på systematisk litteraturstudie i databaserne: EMBASE, CINAHL, PubMed, PsychINFO og Scopus.	Patienter der tilbydes HMV på tværs af bagvedliggende sygdomme og respiratortyper.	Telemonitorering har potentialer i forhold til HMV, men den egentlige værdi og funktion af telemonitorering skal vurderes på baggrund af en samlet betragtning af behandlingstilbud til patientgruppen, ligesom telemonitorering skal indtænkes som del af en samlet behandlingsstrategi. Desuden påpeges behov for yderligere forskning for at afklare værdien af telemonitorering i forhold til at øge kvaliteten af behandlingen til patientgruppen. Der gøres opmærksom på flere barrierer for anvendelse af telemonitorering, herunder manglende tillid til telemedicinske løsninger, manglende viden om omkostningseffektivitet, juridiske uklarheder og uklar transparens i forhold til anvendelse af data indsamlet ved telemedicinske systemer.	Ikke egnet til kvalitetsvurdering.
Dybvik, Nielsen & Brinchmann, 2011, Norge	At udforske udfordringer oplevet af professionelle hjælpere i det kommunale sundhedsvæsen involveret i HMV samt de professionelle forslag til løsninger på de oplevede udfordringer.	Kvalitativt studie baseret på en grounded theory-inspireret tilgang. Data består af fem fokusgruppinterview med i alt 34 informanter (professionelle med administrative eller koordineringsmæssige ansvarsområder og øvrigt faglært og ufaglært personale direkte involveret i den praktiske hjælp i patienternes hjem).	Plejekrævende patienter, der modtager HMV. Ingen kriterier i forhold til bagvedliggende sygdom, alder eller grad af plejebehov.	Pleje for patienter, der modtager HMV, er forbundet med udfordringer for kommunale sundhedsprofessionelle involveret i plejen, både på det administrative niveau og i den daglige pleje i hjemmet. De oplevede udfordringer har konsekvenser for de professionelle arbejdsmiljø og plejen, som gives. De oplevede udfordringer peger på et behov for at definere rollefordeling mellem pårørende og professionelle hjælpere og løsninger, der kan facilitere samarbejdet mellem dem. Desuden bør tages en diskussion om, hvorvidt familiemedlemmer bør kunne indgå i hjælpe teams. Arbejdsmiljø-	Artiklen er af god kvalitet med et velbeskrevet formål og veldokumenteret relevans, tydelig beskrivelse af rekrutteringen og velbegrundede resultater. Studiedesignet er beskrevet, men der mangler en begrundelse for valget af studiedesign. Vurderet ved hjælp af CASP.

Studier (forfatter, år, land)	Formål	Studiedesign/Metode	Population/Empirisk grundlag	Resultater	Kommentarer/Kvalitet
				et for hjælpere bør bedres med henblik på at sikre rette kompetenceniveau og kvalitet i plejen og undgå højt niveau af udskiftning i hjælpere.	
Israaelsson-Skogsberg & Lindahl, 2016, Sverige	At undersøge og beskrive professionelle hjælpers erfaringer med at yde hjælp til respiratorbrugere i eget hjem.	Kvalitativt studie bestående af 15 semistrukturerede interviews med professionelle hjælpere til respiratorbrugere i eget hjem med varierende forankring (ansat af patienten selv, privat hjælperbureau eller kommunen).	Plejekrævende patienter, der modtager HMV. Ingen kriterier i forhold til bagvedliggende sygdom, alder eller grad af plejebehov.	At arbejde som personlig hjælper for respiratorpatienter i hjemmet indebærer oplevelse af både fysisk og følelsesmæssig tæthed til patienten. Arbejdet afføder stolthed og glæde hos hjælperen, men også følelsen af at være alene og sårbar, og det indebærer et stort ansvar forbundet med flere udfordringer, herunder uklare ansvarsfordeling i forhold til pårørende, vanskeligheder med grænsesætning i hjælperopgaver og balancen mellem at være professionel og ven. Der peges på organisering i multidisciplinære teams omkring patienten med forløbskoordinator som en måde at imødekomme udfordringer på, og tillige sikre tilstrækkelige kompetencer, uddannelse og mulighed for support.	Artiklen er overordnet af god kvalitet med en tydelig beskrivelse af relevansen af studiet samt dets formål. Endvidere ligger der en grundig beskrivelse af rekrutteringen, dataindsamlingen og analyseprocessen. Der forekommer dog ingen kritiske overvejelser omkring forfatterens egen rolle, potentielle bias og indflydelse under dataindsamlingen. Vurderet ved hjælp af CASP.
Lewarski & Gay, 2007, USA	At beskrive organisatoriske og behandlingsmæssige aspekter af HMV samt fremlægge hensigtsmæssige procedurer og teknikker i forhold til at fremme effektive overgange fra hospital til eget hjem samt koordinering af behandling i eget hjem.	Reviewartikel	Patienter med hhv. non-invasiv og invasiv respiratorisk behandling i eget hjem.	HMV er en kompleks behandlingsform. Der er få anerkendte og evidensbaserede standarder for praksis og få kliniske retningslinjer. Der peges dog på væsentligheden i at sikre en god overgang til eget hjem for succesfulde forløb i hjemmet, herunder tilstrækkeligt afsatte ressourcer og tid til oplæring af hjælperteam, forventningsafstemning, forberedelse af hjemmet, koordinering af hjælp og pleje samt overlevering af den rette og tilstrækkelige information om det kommende	Ikke egnet til kvalitetsvurdering.

Studier (forfatter, år, land)	Formål	Studiedesign/Metode	Population/Empirisk grundlag	Resultater	Kommentarer/Kvalitet
				forløb til patienter. Desuden forudsætter gode forløb i hjemmet løbende og tæt kommunikation og opfølgning mellem aktører involverede i hjælpen og plejen.	
Maddox & Pontin, 2013, England	At beskrive hjælpernes erfaringer med at arbejde med børn i HMV og deres forældre og derigennem bidrage med viden om kompetencebehov, oplæring og støtte med henblik på at understøtte servicens kvalitet.	Kvalitativt studie baseret på interviews med tre professionelle hjælpere til børn med HMV og på dagbogsnotater udarbejdet af hjælperne.	Professionelle hjælpere til hjemmeboende børn med HMV og behov for døgndækkende overvågning. Ingen kriterier i forhold til bagvedliggende sygdom.	Hjælpere oplever relationen til forældre til børn i respiratorbehandling udfordrende, særligt i forhold til forventninger til plejen og grænse- dragning i forhold til opgavevaretagelse og ansvar. Dette gør jobbet som plejer komplekst følelsesmæssigt, og hjælperen oplever at tvivle på egne kompetencer. Det stiller krav til uddannelse og oplæring af hjælperen samt til tilstedeværelsen af supportmekanismer, fx i form af en kontaktperson sygeplejerske fra hospitalet, som kan kontaktes ved tvivlsspørgsmål og usikkerheder hele døgnet.	Artiklens formål og relevans er beskrevet og begrundet. Der forekommer dog nogle mangler, såsom en begrundelse for valg af studiedesignet i forhold til formålet, om metoden er blevet ændret undervejs, refleksion over datamæthed samt en mere transparent analyseproces. Derudover er rekrutteringen af deltagerne beskrevet tydeligt, og der er reflekteret over studiets begrænsninger. Vurderet ved hjælp af CASP.
Rose et al., 2015, Canada	At generere nationale data vedrørende patienter, sundhedsprofessionelle, behandlingstyper, kriterier for igangsættelse og monitorering af behandling, teknisk udstyr, uddannelse og barrierer i forbindelse med HMV. Dette med henblik på at understøtte planlægning og policy-udvikling på området.	National webbaseret spørgeskemaundersøgelse udformet i et cross-sectional-design.	Professionelle hjælpere til patienter med invasiv eller non-invasiv HMV. 152 ud af 171 relevante hjælpere deltog i undersøgelsen (dvs. 89 % svarprocent)	Der identificeres betydelig variation i forhold til forskellige organisatoriske aspekter forbundet med HMV, herunder kriterier for initiering og monitorering af behandling, tilrettelæggelse af hjælperuddannelse og håndtering af løbende kompetencevurdering. Der påpeges på den baggrund behov for øget opmærksomhed på og oversættelse af nationale guidelines og udvikling af standardiseret behandlingsstrategi i forhold til at sikre mest optimale og sikre arbejdsgange for behandling af respiratorpatienter i eget hjem.	Artiklen har en eksplicit metodebeskrivelse, men derudover begrænsede kritiske refleksioner over valg af metode og proces for dataindsamling og databearbejdning. Ikke vurderet ved hjælp af tjekliste.
Swedberg et al., 2015, Sverige	At beskrive og analysere oplevet kompetence og ansvar blandt professionelle	Spørgeskemaundersøgelse udformet i et cross-sectorial-design.	Professionelle 'sundhedsassistenter' som arbejder med voksne patienter i HMV med	Uagtet professionel baggrund vurderes on-job-training i patientens hjem centralt for oplevet kompetenceniveau og ansvar blandt sund-	Artiklen har en eksplicit metodebeskrivelse og beskrivelse af proces for dataindsamling samt eksplicitte refleksioner over metodiske be-

Studier (forfatter, år, land)	Formål	Studiedesign/Metode	Population/Empirisk grundlag	Resultater	Kommentarer/Kvalitet
	'sundhedsassistenter', der arbejder som hjælpere for patienter med behov for 24 timers overvågning i forbindelse med HMV.		behov for 24-timers overvågning. Ingen kriterier i forhold til patienternes bagvedlig- gende sygdom. Respon- denter rekrutteres gen- nem ansættelsessted. 128 ud af 215 relevante hjælpere deltog i under- søgelsen (dvs. 60 % svarprocent).	hedsprofessionelle hjælpere. Også set i forhold til vurdering af formel uddannelse. Praktiske kompetencer i håndtering af patienten er afgø- rende for oplevelsen af at kunne håndtere daglig arbejdspraksis. Adgang til klinisk supervision også central for oplevet ansvar, da det fremmer den enkeltes sikkerhed og selvtillid i forhold til at påtage sig ansvar.	grænsninger. Ydermere er der en klar præsentation af resultater samt velorganiseret diskussion af resulta- ter. Ikke vurderet ved hjælp af tjekliste.
Vitacca et al., 2009, Italien	At evaluere reduktio- nen i indlæggelser hos patienter med HMV som konsekvens af introduktion af et telemedicinsk pro- gram baseret på 24- timers telefonservice for patienter og hjæl- pere samt adgang til pulsoxymetri sam- menlignet med almin- delig followuppraksis.	Prospektivt randomise- ret, klinisk forsøg med patienter med kronisk respirationsinsufficiens, der modtager behandling i eget hjem, udskrevet fra specifikt italiensk hospital i perioden april 2004 til marts 2007.	Patienter med kronisk respirationsinsufficiens og varierende bagvedlig- gende sygdom. 240 patienter inkluderet i forsøget, hhv. 120 i forsøgsgruppen og 120 i kontrolgruppen. Frafald i forsøgsperioden resul- tede i endeligt 118 re- spondenter i forsøgs- gruppen og 102 i kon- trolgruppen.	For patienter med kronisk respirati- onsinsufficiens og HMV har teleme- dicinsk program med 24-timers callcenter og puls-oxygen-udstyr vist positiv effekt på forebyggelse af indlæggelse, akut forværring i hjemmet og ugentlige henvendelser til praktiserende læge. Desuden antydtes metoden at være omkost- ningseffektiv. Programmet fremstår særligt effektivt for KOL-patienter.	Artiklen er overodnet kategoriseret til 'low risk of bias', bl.a. grundet veludført og velbeskrevet randomi- sering. Der vurderes dog at kunne forekomme performance og detac- tion bias, idet deltagerne, behand- lerne og forskerne ikke er blindet. Desuden skal pointeres, at KOL- patienterne udgør den største del af den inkluderede patientgruppe, hvilket ikke er del af vores patient- population. Vurderet ved hjælp af Cochrane's Risk of Bias Tool.

Bilag 8

Forløbsbeskrivelser for ALS og Duchennes muskeldystrofi, Respirationscenter Vest

Guideline	Undersøgelse/monitorering	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
ALS-forløbsbeskrivelse (Respirationscenter Vest (RCV)) ¹ , Danmark, 2015	<p>Respiratoriske undersøgelser foretages initialt løbende på neurologisk afdeling. Herefter varetages respiratorisk monitorering i stabil fase på RCV.</p> <p>Patienten er respiratorisk upåvirket: Iltmætning med pulsoxymeter, FVC siddende (evt. liggende), 'peak cough flow', peakflow. Undersøgelsen foretages hver 3.-6. måned.</p> <p>Patienten har mindst en af følgende: Mistænkt hypoventilation, FVC <70 % af forventet, brug for assisteret ventilation. Patienten henvises og tilknyttes RCV. Der foretages vågen og sovende kardiorespiratorisk monitorering (CRM). Undersøgelserne foretages hver 3.-6. måned.</p>	<p>Algoritme for respiratorisk intervention på RCV.</p> <p>Trin 1: FCV >70 % og hyppige luftvejs-/lungeinfektioner. Tiltag: Patienten tilbydes dagtids-CPAP og eller behandling af sammenfald af lungevæv, typisk x 3 dagligt.</p> <p>Trin 2: Patienten har en eller flere af følgende: Tegn på hypoventilation, perioder med SaO₂ <92 % eller fald i SaO₂ >4 % under søvn i forhold til dagtidsværdi, natlig CO₂ >6 kPa, tegn på øget respiratorisk arbejde, fasefor-skudt og/eller paradoks respiration, dagtids-SaO₂ <95 og/eller CO₂ >6 kPa. Tiltag: Natlig NIV-behandling overvejes påbegyndt. Patienten orienteres om konsekvenserne af behandling og af fravalg af behandling.</p> <p>Trin 3: Patienten har en eller flere af følgende: FVC <40 %, lungeinfektion, sekretproblemer og/eller hosteinsufficiens. Tiltag: Cough assist kan tilbydes.</p> <p>Trin 4: Patienten har en eller flere af følgende: Patienten begynder selv at udvide tiden med NIV ud fra et subjektivt behov, symptomer på hypoventilation i dagtiden, tiltagende dyspnø, taledyspnø, dagtids-SaO₂ <95 og/eller CO₂ >6 kPa. Tiltag: Natlig NIV og NIV i dagtid. Snarlig stillingtagen til elektiv trakeostomi. Patienten orienteres om konsekvenserne af behandling og af fravalg af behandling.</p> <p>Trin 5: Patienten har en eller flere af følgende: Tiltagende NIV-brug, typisk 12-18 timer i døgnet, symptomer på hypoventilation, utilsigtet vægttab, hyppige pneumonier trods vaccination. Tiltag: Trakeostomi og hjemmerespiratorbehandling planlægges og gennemføres, hvis patienten vælger dette.</p>	<p>Overgang til invasiv respiratorbehandling hos ALS-patienter bør overvejes særligt nøje i lyset af sygdommens progredierende natur og de deraf afledte komplikationer og omkostninger. I disse overvejelser bør følgende faktorer vurderes: Alder, komorbiditet, progressionshastighed, kommunikationsevne, tegn på kognitiv dysfunktion/frontotemporal demens, sociale-familære forhold, psykiatrisk sygdom og/eller misbrug.</p>

Guideline	Undersøgelse/monitorering	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
Forløbsbeskrivelse af behandlingstilbud til Duchennes muskeldystrofi (DM) på Respirationscenter Vest (RCV), Danmark, 2013	<p>Mobil og alder >6 år: FVC siddende Mindst x 1 årligt.</p> <p>Kørestolsbruger: Iltmætning med pulsoxymeter , FVC siddende, 'peak cough flow' , peakflow. Herudover kan måling af end-tidal CO₂ eller i udvalgte tilfælde kapillærgastal anbefales. Undersøgelserne foretages mindst hver 6. måned.</p> <p>Kørestolsbruger og en af følgende: Mistænkt hypoventilation, FVC <70 % af forventet, brug for assisteret ventilation. Patienten henvises og tilknyttes RCV (henvisningstidspunkt til RCV): Vågen og sovende, kardiorespiratorisk monitorering (CRM). Undersøgelserne gentages mindst 1 gang årligt.</p>	<p>Trin 1: FVC <70 %: Dagtid-CPAP til forebyggelse eller behandling af sammenfald af lungevæv typisk, 3 gange dagligt. Henvisning til RCV.</p> <p>Trin 2: Tegn på hypoventilation. (patienter med FVC <30 % er i højrisiko), Perioder med SaO₂ <92 % eller fald i SaO₂ >4 % under søvn i forhold til dagtidsværdi, natlig CO₂ >6 kPa, Tegn på øget respiratorisk arbejde og faseforskuet og/eller paradoks ventilation, dagtid-SaO₂ < 95 og /eller CO₂ >6 kPa, Præ- og postoperativt ved større kirurgi ved FVC <50 %: Natlig non-invasiv respiratorisk (NIV) behandling overvejes påbegyndt.</p> <p>Trin3: FVC <40 % og/eller 1,25, alder >14 år, lungeinfektion og basis 'peak cough flow' < 270 l/min, basis 'peak cough flow' < 160 l/min, Sekretproblemer eller hosteinsufficiens: Cough assist kan tilbydes.</p> <p>Trin 4: Patienten begynder selv at udvide tiden med NIV ud fra subjektivt behov, symptomer på hypoventilation i dagtiden, tiltagende dyspnø, taledyspnø, dagtid-SaO₂ < 95 og/eller CO₂ >6 kPa, postoperativt til forebyggelse af intubation/udtrapning af respirator ved FVC <50 % og/eller 'peak cough flow' <270 l/min.: Natlig NIV og NIV i dagtid, snarlig stillingtagen til elektiv trakeostomi.</p> <p>Trin 5: Tiltagende NIV-brug, typisk 12-18 timer i døgnet, symptomer på hypoventilation, utilsigtet vægttab, hyppige pneumonier trods vaccination, trods relevant NIV-behandling gennemført, behov for intubation og flere mislykkede ekstubationsforsøg og hjemmerespiratorbehandling</p>	?

Bilag 9

Kliniske karakteristika for de inkluderede internationale kliniske retningslinjer

Guideline	Formål	Patientgruppe	Metode
American Thoracic Society, USA, 2016	- At udvikle evidensbaserede retningslinjer for udskrivning fra sygehus og efterfølgende håndtering af børn med behov for langvarig HMV.	Børn med behov for invasiv HMV.	En arbejdsgruppe bestående af kliniske eksperter med erfaring inden for behandling og pleje af børn med behov for langvarig invasiv HMV blev sammensat af "The American Thoracic Society". Der blev udført en systematisk søgning og udvælgelse af litteratur. Anbefalingerne blev udarbejdet med udgangspunkt i GRADE-metoden.
NICE, England, 2016.	- At vurdere den kliniske og sundhedsøkonomiske evidens for håndtering af personer med motorneuronsygdom fra diagnosetidspunkt inkl. kommunikation vedrørende diagnose. - At komme med anbefalinger vedrørende monitorering af sygdomsprogression, håndtering af tilstanden (særligt muskelsvaghed, sekretproblemer, åndenød og problemer med ernæring), mobilitet, følelsesmæssige og psykologiske forandringer og forberedelse til afslutningen af livet. - At fastslå den bedste måde at organisere pleje og håndtering af personer med motorneuronsygdom.	Voksne (18 år eller derover) med motorneuronsygdom. (Personer med frontaldemens bliver beskrevet som en separat subpopulation).	Retningslinjen er en opdatering af en guideline fra 2010 med titlen: <i>"Motor neurone disease. The use of non-invasive ventilation in the management of motor neurone disease"</i> . Guidelinen er udarbejdet af NGC på vegne af NICE. Der er udført en systematisk søgning og udvælgelse af litteratur. Anbefalingerne er udarbejdet med udgangspunkt i GRADE-metoden.
Canadian Thoracic Clinical Society, Canada, 2011	- At komme med anbefalinger til patienter, plejepersonale/pårørende og sundhedspersonale om brugen af HMV til forskellige patientkategorier.	Alle voksne som er i risiko for at anvende eller anvender HMV.	Retningslinjen er udarbejdet i overensstemmelse med AGREE. GRADE-metoden er anvendt til udarbejdelse af anbefalinger og til vurdering af kvaliteten af evidens.
British Thoracic Society, England, 2012	- At opsummere den tilgængelige evidens vedrørende respiratorisk håndtering af børn med neuromuskulære lidelser samt at komme med anbefalinger, som kan bidrage til, at sundhedsprofessionelle kan levere patientpleje af høj kvalitet.	Børn med neuromuskulære lidelser og respiratoriske problemer.	Der er udført en systematisk søgning og gennemgang af litteratur. Studiernes kvalitet er vurderet ved hjælp af tjeklister. I de tilfælde, hvor der ikke forelå evidens inden for et givet område, er anbefalinger blevet udarbejdet på baggrund af konsensus blandt eksperter (Delfi-metode).
EFNS task force, Europa, 2012.	- At etablere evidensbaserede samt patient- og pårørendecentrerede anbefalinger for diagnosticering og håndtering af patienter med ALS til klinikere.	Patienter som har eller som mistænkes at have ALS og deres pårørende.	Der er udført en systematisk søgning og gennemgang af litteratur. Alle anbefalinger skulle vedtages enstemmigt af arbejdsgruppen.
German Society for Pneumology (DGP), Tyskland, 2010	- At fastslå specifikke indikationer (inkl. det rette tidspunkt) for opstart af HMV. - At etablere hensigtsmæssige diagnostiske og terapeutiske metoder til implementeringen af HMV.	Patienter med kronisk respirationsinsufficiens.	Retningslinjerne er udarbejdet i overensstemmelse med AWMF-systemet og svarer til S2-niveau. Der er ikke foretaget en formel vurdering af kvaliteten af evidensen. Konsensus blev opnået på to konferencer. Littera-

	<ul style="list-style-type: none"> - At planlægge overflytningen af den ventilerede patient fra hospitalet til hjemmet. - At adressere de tekniske og personalemæssige forudsætninger for de parter som er involveret i behandlingen af en patient, som modtager HMV. - At samle et sæt kriterier for kvalitetskontrol af HMV. 		turen blev identificeret via systematisk søgning i Medline og Cochrane samt via individuelle anbefalinger.
American Academy of Neurology, 2009 (opdateret i 2013)	- At foretage en systematisk gennemgang af evidensen vedrørende håndtering af patienter med ALS.	Patienter med ALS.	Der er udført en systematisk søgning i en række databaser. Den identificerede litteratur er kvalitetsvurderet og kvaliteten af evidensen er vurderet ved hjælp af evidensklassifikationssystem (A, B, C og D). Styrken af anbefalingerne er direkte linket til kvaliteten af evidensen. Anbefalingerne er formuleret på baggrund af ekspertkonsensus.

Bilag 10

Tabel 1. Internationale kliniske retningslinjer for HMV til patienter med neuromuskulære lidelser generelt

Guideline	Respiratoriske undersøgelser	Visitationskriterier	Anbefaling
German Society for Pneumology, Tyskland, 2010	<p>Patienter med neuromuskulær sygdom (NMD) som er i risiko for at udvikle respiratorisk muskelsvaghed bør tilbydes regelmæssige undersøgelser af lungefunktion og blodgasser (hver 3.-12. måned, afhængigt af den underliggende sygdom): En polygrafi er også nødvendig, hvis VC <70 %. Disse foranstaltninger er vigtige for at sikre en tidlig diagnosticering af respiratorisk muskelsvaghed, snarere end først at detektere det, når der opstår respiratorisk dekomensation.</p>	<p>Indikationer for NIV</p> <p>NIV til patienter med NMD og kliniske tegn på CRF er indiceret ved følgende (mindst et kriterium skal være opfyldt):</p> <ul style="list-style-type: none"> - Kronisk hyperkapni i dagtimerne med PaCO₂ ≥45 mmHg. - Natlig hyperkapni med PaCO₂ ≥50 mmHg. - Normokapni i dagtid med en stigning i PTcCO₂ på ≥10 mmHg om natten. - En hurtig, signifikant reduktion i VC. <p>Ved de første tegn på natlig hyperkapni skal patienten tilbydes NIV-behandling snarere end at afvente, indtil hyperkapni også optræder i dagtimerne. Der er ingen indikationer for profylaktisk HMV i fravær af symptomer eller hypoventilation. NIV er også indiceret forud for elektiv vertebral column-korrektionskirurgi, når VC <60 % af forventet og FEV1 <40 % af forventet eller under graviditet med begrænset lungefunktion samt palliativ pleje af dyspnø.</p> <p>Indikationer for invasiv ventilation via trakeostomi</p> <p>Der er indikation for trakeostomi i følgende situationer (i overensstemmelse med den grundigt informerede patients ønsker og samtykke):</p> <ul style="list-style-type: none"> - Når det ikke er muligt at tilpasse en maske til patienten. - Ved intolerance over for NIV. - Ved ineffektivitet af NIV. - Ved alvorlige bulbære symptomer med tilbagevendende aspiration. - Ineffektiv non-invasiv håndtering af sekret. - Når det ikke er muligt at skifte til NIV efter invasiv ventilation. 	<ul style="list-style-type: none"> - NIV er det primære behandlingstilbud for HMV af patienter med neuromuskulære lidelser og kronisk respirationsinsufficiens. - I tilfælde hvor NIV-behandling ikke er mulig eller ikke er effektiv, bør invasiv respiratorbehandling kun iværksættes efter eksplicit ønske fra patient og pårørende.

Tabel 2. Internationale kliniske retningslinjer for HMV til patienter med ALS/motorneuronsygdom

Guideline	Respiratoriske undersøgelser	Visitationskriterier	Anbefaling
Canadian Thoracic Society ¹ , Canada, 2011	<p>Regelmæssig monitorering af ALS-patienter tilrådes fra diagnosetidspunktet hver 2.-6. måned afhængig af forventet hastighed i sygdomsprogression og bør indeholde følgende:</p> <p>a) Symptommengennemgang som bør omfatte ortopnø, dyspnø, dårlig søvn, overdreven træthed i dagtimerne, dårlig koncentration, hovedpine om morgenen (GRADE 1C).</p> <p>b) Måling af siddende FVC (GRADE 1C).</p> <p>c) Måling af én eller flere af følgende: liggende VC, SNP, PImax (MIP) (GRADE 1C).</p> <p>d) Måling af ABG (arterieblodgasser) eller end-tidal CO₂ (EtCO₂), når der er mistanke om hyperkapni (GRADE 1C).</p> <p>e) Natlig oxymetri ± transkutan CO₂ (tCO₂), når der er mistanke om søvnrelateret vejrtrækningsbesvær (GRADE 2C).</p> <p>f) Måling af PCF (GRADE 1C).</p>	<p>NIV bør tilbydes patienter med en eller flere af følgende:</p> <p>a) Ortopnø (GRADE 1B)</p> <p>b) Hyperkapni i dagtiden (GRADE 1B)</p> <p>c) Symptomatisk søvnbesværet vejrtrækning (GRADE 1C)</p> <p>d) FVC <50 % af forventet (GRADE1C)</p> <p>e) SNP <40 cmH₂O eller PImax <40 cmH₂O (GRADE 1C)</p>	<p>- Respiratorindstillinger skal tilpasses for optimal patientkomfort og forbedring af symptomerne. ABG og/eller natlig oxymetri og/eller polysomnografi er ikke påkrævet, men kan være nyttige i visse tilfælde (GRADE 1C).</p> <p>- Når der anvendes bilevel-trykventilatorer til NIV, anbefales en "back up"-respirator (GRADE 1C).</p> <p>- Indikatorer for effekten af respiratorbehandling bør omfatte symptomopklaring, natlig oxymetri og/eller EtCO₂. (Grade 1C)</p> <p>- NIV bør betragtes som den foretrukne løsning til ventilering, selv når respiratorbehandling er påkrævet 24 timer i døgnet.</p> <p>- Elektiv invasiv HMV (trakeostomi) kan overvejes og er afhængig af regionale ressourcer og omhyggelig drøftelse med patienten og de pårørende (GRADE 1C).</p> <p>- Langvarig invasiv respiratorbehandling kan tilbydes efter akut respirationssvigt, som kræver invasiv ventilering, såfremt patienten og pårørende forstår konsekvenserne og passende støtte er tilgængelig (GRADE 2C).</p>
EFNS task force ¹ , Europa, 2012.	<p>- Symptomer eller tegn på respirationsinsufficiens (herunder symptomer på natlig hypoventilation) skal kontrolleres ved hvert besøg (GCPP).</p> <p>- FVC og VC er de bedst tilgængelige og mest praktiske tests til regelmæssig monitorering af respirationsfunktionen (GCPP).</p> <p>- Sniff nasaltryk (SNP) kan anvendes til monitorering, især hos bulbære patienter med svag læbemuskulatur (GCPP).</p> <p>- Perkutan natlig oxymetri anbefales som en screeningstest og til monitorering af den respiratoriske funktion (GCPP).</p>		<p>- Symptomer eller tegn på respirationsinsufficiens bør foranledige drøftelser med patienten og pårørende om behandlingsmuligheder og den terminale fase. Tidlige drøftelser er nødvendige for at tillade forudgående planlægning og direktiver (GCPP).</p> <p>- NIV bør overvejes frem for invasiv HMV hos patienter med symptomer eller tegn på respirationsinsufficiens (GCPP).</p> <p>- NIV kan forlænge overlevelsen i mange måneder (niveau A) og kan forbedre patientens livskvalitet (niveau C).</p> <p>- Invasiv HMV har stor impact på pårørende og bør kun påbegyndes efter informeret drøftelse (GCPP).</p> <p>- Ikke planlagt (nød-) invasiv respiratorbehandling bør undgås gennem en tidlig drøftelse vedr. "end-of-life"-spørgsmål, koordinering med palliative teams og erklæring om patientens holdning til respiratorbehandling i forbindelse med akut forværring (GCPP).</p> <p>- Oxygenterapi alene bør undgås, da det kan forværre CO₂-ophobning og mundtørhed. Brug kun ilttilskud, hvis symptomatisk hypoxi er til stede (GCPP).</p>

Guideline	Respiratoriske undersøgelser	Visitationskriterier	Anbefaling
<p>NICE², England, 2016.</p> <p>NB: omhandler kun NIV, ikke invasiv HMV.</p>	<p>Som en del af de indledende undersøgelser til at diagnosticere motorneuronsygdom eller umiddelbart efter diagnosticering skal følgende test udføres for at fastslå patientens baseline respirationsfunktion: iltmætning målt ved pulsoxyometri (SpO₂).</p> <p>Herefter en eller begge af følgende: FVC eller VC, sniff nasalinspiratorisk tryk (SNIP) og/eller maksimal inspiratorisk tryk (MIP). [2010]</p> <ul style="list-style-type: none"> - Såfremt personen har svær bulbær forringelse eller alvorlige kognitive problemer, der kan være relateret til respiratorisk forringelse: - Sikr at SpO₂ måles (i hvile og vejrtrækning i stueluft) - Udfør ikke andre respiratoriske funktionstests (FVC, VC, SNIP og MIP), hvis udstyret ikke er egnet til patienten. [2010] - En sundhedsprofessionel med relevante kompetencer skal udføre de respiratoriske funktionstests hver 2.-3. måned, selv om der kan være tilfælde, hvor testene kan udføres mere eller mindre ofte, afhængigt af om der er symptomer og tegn på respirationssvigt, hastigheden af progressionen af MND, personens præference og omstændighederne. [2010, ændret 2016] - Udfør arteriel- eller kapillærblodgasanalyse, hvis personens SpO₂ (målt i hvile og indåndende stueluft) ≤ 92 %, såfremt patienten har kendt lungesygdom, og ≤ 94 %, hvis patienten ikke har kendt lungesygdom. 	<p>Mulig henvisning til respiratorservice for yderligere undersøgelser baseret på drøftelse med patienten og på dennes ønsker såfremt:</p> <ul style="list-style-type: none"> - FVC og CV er under 50 % - FVC og VC er under 80 % af forventet værdi plus ethvert tegn på respirationsinsufficiens, herunder særligt ortopnø. - SNIP eller MIP under 40 cmH₂O. - SNIP eller MIP mindre end 65 cmH₂O for mænd eller 55 cmH₂O for kvinder plus eventuelle symptomer eller tegn på respirationsinsufficiens, især ortopnø. Gentagne regelmæssige tests viser et fald i SNIP eller MIP på mere end 10 cmH₂O i løbet af 3 måneder. 	<p>NIV til behandling af respirationsinsufficiens hos patienter med motorneuronsygdom:</p> <ul style="list-style-type: none"> - Tilbyd et prøveforløb med NIV, såfremt personens symptomer og resultaterne af de respiratoriske funktionstests indikerer, at personen vil få gavn af behandlingen. [2010, ændret 2016]. - Overvej kun et prøveforløb med NIV til patienter med alvorlige bulbære symptomer eller alvorlige kognitive problemer, der kan være relateret til respirationsinsufficiens, såfremt patienten vil have gavn af forbedring i søvnrelaterede symptomer eller korrektion af hypoventilation. [2010, ændret 2016] - Forud for opstart af NIV, bør det tværfaglige hold sammen med den respiratoriske ventilationstjeneste udføre og koordinere en patientcentreret risikovurdering på baggrund af drøftelse med patienten, pårørende og hjælpere. Følgende bør overvejes: den mest hensigtsmæssige form for NIV og type af maske baseret på patientens behov, livsstilsfaktorer og sikkerhed, personens tolerance for behandlingen, risiko og mulige konsekvenser ved ventilationssvigt, nødvendig strømforsyning, inkl. Batteri-backup, hvor nemt patienten kan komme til hospitalet, risici forbundet med at rejse væk fra hjemmet (især i udlandet), hvorvidt en luftfugter er nødvendig, spørgsmål vedrørende løsning af sekret, tilgængeligheden af hjælpere. [2010].
<p>American Academy of Neurology¹, 2009 (opdateret i 2013)</p>	<p>Hvad er de optimale lungetests til påvisning af respiratorisk insufficiens?</p>		<p>Konklusioner</p> <ul style="list-style-type: none"> - Natlig oxymetri er muligvis effektiv til at opdage tidlig respirationsinsufficiens, og den tidlige brug af NIV kan muligvis øge compliance (2 Klasse III-studier). - Bulbær involvering og dysfunktion medfører muligvis lavere compliance for NIV (2 Klasse III-studier).

Guideline	Respiratoriske undersøgelser	Visitationskriterier	Anbefaling
	<p>Konklusioner</p> <ul style="list-style-type: none"> - Natlig oxymetri og MIP er muligvis mere effektive til at opdage tidlig respirationsinsufficiens end oprejst FVC (2 Klasse III-studier). - Liggende FVC er muligvis mere effektiv end oprejst FVC til at opdage diaphragmasvagthed og korrelerer bedre med symptomer på natlig hypoventilation (2 Klasse III-studier). - Sniff transdiafragmatisk tryk (ADI) og sniff nasaltryk (SNP) er muligvis effektive til at opdage hyperkapni og natlig hypoxæmi (2 Klasse III-studier). <p>Anbefalinger</p> <ul style="list-style-type: none"> - Natlig oxymetri kan overvejes til at detektere hypoventilation (uafhængigt af FVC) (niveau C). <p>Liggende FVC og MIP kan betragtes som nyttige ved rutinemæssig monitoring af respirationen som supplement til den oprejste FVC (niveau C).</p> <ul style="list-style-type: none"> - SNP kan overvejes til detektion af hyperkapni og natlig hypoxæmi (niveau C). 		<p>Anbefaling</p> <p>NIV kan overvejes ved de tidligste tegn på natlig hypoventilation eller respirationsinsufficiens med henblik på at forbedre compliance af NIV hos patienter med ALS (niveau C).</p>

¹: Anbefalingerne omhandler kun patienter med ALS

²: Anbefalingerne omhandler patienter med motorneuronsygdom (MND), herunder ALS

Tabel 3. Internationale kliniske retningslinjer for HVM til patienter med Duchennes muskeldystrofi

Guideline	Undersøgelse/monitorering	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
Canadian Thoracic Society, Canada, 2011.	<ul style="list-style-type: none"> - Der bør foretages grundig anamnese, og patienterne bør uddannes til at rapportere symptomer forenelige med hypoventilation, herunder forstyrret søvn, overdreven træthed i dagtimerne, morgenhovedpine, og vægttab (GRADE 1C). - Mål VC, MIP, MEP, PCF og vågen oxyhæmoglobinmætning med pulsoxymetri mindst en gang årligt; hvis VC <40 % af forventet, skal der også foretages vurdering af CO₂-ophobning i vågen tilstand ved non-invasive metoder eller ABG-analyse (GRADE 1C). - Udfør en evaluering af ventilation under søvn, hvis der er symptomer forenelige med natlig hypoventilation eller andre former for søvnrelaterede vejrtrækningsproblemer (GRADE 1C). - I fravær af sådanne symptomer bør der også overvejes regelmæssig screening for søvnrelaterede vejrtrækningsproblemer, når FEV1 eller FVC <40 % af forventet (GRADE 1C). 	<ul style="list-style-type: none"> - Tilbyd natlig NIV til patienter med hyperkapni i dagtimerne (arteriel pCO₂ >45 mmHg i dagtimerne), eller når der er dokumenteret natlig hyperkapni og tilstedeværelsen af symptomer forenelige med hypoventilation (GRADE 1B). - NIV under søvn bør tilbydes patienter som demonstrerer en større grad af natlig hypoxæmi, også selv om det er asymptomatisk (GRADE 2C). 	<ul style="list-style-type: none"> - Individualiser beslutningen om overgangen fra natlig NIV til dagtidsventilation ved omhyggeligt at evaluere patientfaktorer (symptomer, bulbær involvering, patientpræference etc.) og tilgængelige ressourcer. - Hos patienter der har behov for ventilation i dagtimerne bør man kraftigt overveje "mundstykke-ventilation" som et alternativ til invasiv trakeostomi (GRADE 1B).

Tabel 4. Internationale kliniske retningslinjer for HVM til patienter med andre muskulære dystrofier og myopatis

Guideline	Undersøgelse	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
Canadian Thoracic Society, Canada, 2011.	<ul style="list-style-type: none"> - Udfør periodiske kliniske vurderinger og spirometri med 6-12 måneders intervaller, herunder siddende (plus liggende hvis diafragmasvaghed er mistænkt) spirometriske tests (GRADE 1C). - Overvej monitorering af søvnrelaterede vejrtrækningsproblemer hos patienter med VC <60 % (GRADE 1C). - Overvej ABG eller natlig mål for CO₂ hos patienter med VC <40 % med henblik på at udelukke hyperkapni (GRADE 1C). 	NIV bør tilbydes, når der er hyperkapni i dagtimerne eller symptomatisk natlig hypoventilation (GRADE 1C).	

Tabel 5. Internationale kliniske retningslinjer for HMV til patienter med kyfaskoliose

Guideline	Undersøgelse	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
Canadian Thoracic Society, Canada, 2011.	Patienter med kyfaskoliose bør få foretaget periodiske spirometritests, og hvis FVC er <50 %, bør der iværksættes løbende undersøgelser for tegn på hyperkapnisk respirationssvigt (GRADE 1C)	Langvarig natlig NIV bør tilbydes til alle patienter med kyfaskoliose som har udviklet kronisk hyperkapnisk respirationssvigt (GRADE 1B). Patienter med hypoxæmi, men uden hyperkapni, kan med forsigtighed behandles med iltbehandling alene under monitorering for observering af evt. udvikling af hyperkapni (GRADE 1C). Oxygenterapi kan føjes til NIV, såfremt det anses for nødvendigt (GRADE 1C).	
German Society for Pneumology (DGP), Tyskland, 2010 (restrictive thoracic diseases)	Patienter med VC <50 % af forventet skal gennemgå klinisk kontrol, herunder polygrafi inden for 3 måneder.	Følgende indikationskriterier er gyldige, når symptomer på kronisk respirationssvigt og en reduceret livskvalitet er til stede (mindst 1 kriterium skal være opfyldt): - Kronisk hyperkapni i dagtimerne med PaCO ₂ ≥45 mmHg - Natlig hyperkapni med PaCO ₂ ≥50 mmHg - Dagtidnormokapni med en stigning i PTcCO ₂ på ≥10 mmHg om natten. Patienter uden manifest hyperkapni, men med svær restriktiv ventilatorisk dysfunktion (VC <50 % af forventet), skal gennemgå klinisk kontrol, herunder polygrafi inden for 3 måneder.	NIV er det primære behandlingstilbud til HMV til patienter med restriktive thorax-sygdomme og kronisk respirationsinsufficiens.

Tabel 6. Internationale kliniske retningslinjer for HMV til patienter med rygmarvsskade

Guideline	Undersøgelse	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
Canadian Thoracic Society, Canada, 2011.	<p>Patienter som har behov for akut invasiv ventilering ved indlæggelse efter rygmarvsskade</p> <p>Alle patienter skal vurderes individuelt i forhold til behovet for langsigtet ventilation, enten i den akutte fase eller ved opfølgning. NIV er at foretrække frem for invasiv ventilation (GRADE 1C).</p> <p>Patienter som fravænnens respiratorbehandling under indlæggelse eller er uafhængige af respiratorbehandling efter rygmarvsskade</p> <p>På langt sigt bør patienter med rygmarvsskade, som er uafhængige af respirator, regelmæssigt monitoreres for at identificere udviklingen af søvnrelateret vejrtrækningsbesvær eller respirationssvigt, og behovet for NIV bør vurderes (Konsensus).</p>	<p>Patienter som har behov for akut invasiv ventilering ved indlæggelse efter rygmarvsskade</p> <ul style="list-style-type: none"> - Forsøg på fravænning af respirator bør overvejes, når det er muligt. - Ved behov for langvarig respiratorbehandling anbefales NIV frem for invasiv respiratorbehandling. <p>Patienter som fravænnens respiratorbehandling under indlæggelse eller er uafhængige af respiratorbehandling efter rygmarvsskade:</p> <p>Fysiologiske kriterier, som indikerer potentielt behov for langvarig respiratorbehandling, omfatter:</p> <p>FVC <10 ml/kg eller under 25 % af forventet, PImax <50 cmH₂O, PaCO₂ i dagtiden >50 mmHg og natlig desaturation.</p>	<ul style="list-style-type: none"> - Protokoller til fravænning med progressiv ventilatorfri vejrtrækning (PVFB) bør overvejes til egnede patienter med tetraplegi som er afhængige af ventilation. (GRADE 1C) 'hrenic nerve pacing' anbefales til selekterede patienter som et alternativ til PPV alene (GRADE 2C).

Tabel 7. Internationale kliniske retningslinjer for HMV til børn

Guideline	Undersøgelse	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
American Thoracic Society, USA, 2016	-	-	Retningslinjen kommer med en række anbefalinger vedr. organisering af HMV. Nedenfor præsenteres udvalgte anbefalinger: - Hos børn med behov for permanent invasiv respiratorbehandling bør der være en vågen og opmærksom omsorgsperson omkring barnet døgnet rundt (Stærk anbefaling, lav kvalitet af evidens). - Det foreslås, at børn med behov for hjemmerespirator monitoreres med et oxymeter frem for kardiorespiratorisk monitorering eller respiratoralarmer alene ("Conditional" anbefaling, meget lav kvalitet af evidens).
British Thoracic Society, England, 2012	<ul style="list-style-type: none"> - Klinisk vurdering af den respiratoriske funktion bør være en del af enhver lægekonsultation for børn med neuromuskulær svaghed og bør være rettet mod at identificere progressiv muskelsvækkelse, evne til at håndtere luftvejsinfektion, aspiration, progression af skoliose og søvnrelateret vejrtrækningsbesvær. [D] - Ulnalængde eller armlængde bør anvendes til at forudsige lungefunktion hos børn med neuromuskulær sygdom, hvis højden ikke kan måles nøjagtigt. [B] - Vitalkapacitet bør måles hos alle børn med neuromuskulær sygdom, der er i stand til at udføre spirometri som en del af den respiratoriske vurdering. [C] - Hoste-peakflow bør anvendes som en del af vurderingen af effektiv fjernelse af sekret hos børn over 12 år med neuromuskulær sygdom. [GPP] - Vurdering for søvnrelateret vejrtrækningsbesvær skal foretages ikke mindre end 1 gang om året for børn med neuromuskulær sygdom, der har en vitalkapacitet på <60 % af forventet, og til børn der er "ikke-ambulante" grundet progressiv muskelsygdom eller som aldrig opnår gangfunktion. [D] - Vurdering for søvnrelateret vejrtrækningsbesvær skal foretages minimum 1 gang om året for alle spædbørn med svaghed, børn med neuromuskulær sygdom, der har symptomer på obstruktiv søvnapnø eller hypoventilation, børn med klinisk tegn på diafragmasvaghed og børn med rigide ryg-syndromer. [GPP] 	<ul style="list-style-type: none"> - Børn med neuromuskulær lidelse som resulterer i symptomatisk natlig hypoventilation eller hyperkapni i dagtimerne bør støttes med NIV. [C] - En non-invasiv fremgangsmåde bør overvejes til børn med behov for ventilation i dagtimerne. [D] 	<ul style="list-style-type: none"> - Børn med behov for ventilationsstøtte i mere end 16 timer om dagen bør være forsynet med to ventilatorer i tilfælde af udstyrssvigt. [GPP] - Når et barn er påbegyndt NIV, bør der udføres en søvnpolygrafi eller oxykapnografi for at kontrollere, at NIV-behandlingen effektivt har afskaffet den søvnrelaterede hypoventilation. - Ventilatorindstillinger skal justeres og kontrolleres igen efter behov. [GPP] - Børn, der understøttes af NIV, bør vurderes regelmæssigt med gentagne søvnundersøgelser for at sikre at NIV fortsat er effektivt til at forebygge hypoventilation. - Hyppigheden af undersøgelserne vil variere alt efter kliniske forhold, men bør ikke være mindre end hver 12. måned. [D] - Vurdering af huden for skader og ansigtsudfladning bør udføres regelmæssigt hos børn, der bruger NIV og masken skal tilpasses omhyggeligt for at minimere disse komplikationer. [GPP] - Trakeostomirør bør dimensioneres og anbringes omhyggeligt for at sikre at spidsen af røret ikke støder op mod luftrøret. [GPP] - Familiens og barnets præferencer bør tages i betragtning, når man overvejer trakeostomi. [GPP] - Oxygen alene bør ikke anvendes til at korrigere hypoxæmi forårsaget af hypoventilation hos patienter med neuromuskulær sygdom. [GPP] - NIV skal være førstelinjebehandling til børn med NMW med akut respirationssvigt. [D]

Guideline	Undersøgelse	Visitationskriterier	Anbefalinger ved brug af HR
	<ul style="list-style-type: none"> - Hos små børn, hvis sygdomsprogressionsrate er usikker, eller hos ældre børn, som har vist en klinisk forværring, eller som lider af gentagne infektioner, eller som udvikler symptomer på søvnapnø, kan søvnevurdering være nødvendig hyppigere end 1 gang om året. [GPP] - Alle børn med unormal natlig oxymetri bør få foretaget nøjere søvnmonitorering med mindst oxykapnografi. [GPP] - Når der er tvivl om årsagen til søvnrelateret vejrtrækningsbesvær, bør der udføres natlig polysomnografi eller sovende polygrafi. [GPP] 		
German Society for Pneumology (DGP), Tyskland, 2010		<p>Der er i princippet ingen forskel mellem børn og voksne i indikationen for invasiv ventilation, og beslutning om påbegyndelse af invasiv ventilation bør foregå i tæt samråd med barnet, forældrene og behandlerteamet.</p>	<ul style="list-style-type: none"> - Ikke alle ventilatorer er licenseret og egnet til små børn. - De fleste børn med muskelsvaghed er ude af stand til selvstændigt at "trigge" ventilatoren. - Små børn har meget lave tidalvoluminer. - Børn har uregelmæssige vejrtrækningsfrekvenser og -dybder. - De ventilatoriske behov hos børn ændrer sig konstant (afhængigt af tilstand af vågenhed, fase af søvnen, feber, luftvejsinfektion). - Skræddersyede masker har en relativt høj mængde af "dead space" og passer ofte ikke til børn, især ikke til spædbørn. - Risikoen for at udvikle misdannelser i ansigtet forøges, når der anvendes masker med højt kontaktryk. <p>Spædbørn, samt børn med muskelsygdom og immobilitet er ikke i stand til selvstændigt at fjerne ventilationsmasken i nødsituationer (fx strømsvigt).</p> <p>Derfor skal følgende specifikke krav være opfyldt:</p> <ul style="list-style-type: none"> - En følsom "trigger" og lave tidalvoluminer skal være muligt for optimal ventilationskontrol. - Især blandt spædbørn er vellykket ventilation normalt kun muligt med trykdrevet udstyr. - Der er bedre tilpasning til vejrtrækningsmønstret og lækage under trykdrevet ventilation end under ventilation med forudindstillede voluminer - Manglende effekt af en konventionel maske angiver udskiftning til en individuelt tilpasset maske. - Fremstillingen af nye masker er ofte nødvendigt på grund af vækst.

Bilag 11

Antallet af henvisninger på Respirationscenter Syd (tabellen hænger sammen med tabel 8.3)

	Respirationscenter Syd			
	2013	2014	2015	2016
<i>Henvisninger</i>	8	18	488	338
<i>Nye forløb RSD</i>	-	-	-	-

