

**Foreldres diagnosekunnskap, helsekompetanse og
myndighet før og etter veiledning om sjeldne diagnoser**

Torun M. Vatne , Jeanette U. Miller , Mina Susanne Weedon-Fekjær og Una Stenberg

Studien er finansiert av Nasjonal kompetansetjeneste for
sjeldne diagnoser (NKSD), Oslo universitetssykehus HF

Foreldres diagnosekunnskap, helsekompetanse og myndighet før og etter veiledning om sjeldne diagnoser

Tverrfaglig samarbeid og brukermedvirkning er sentralt i helsepsykologisk arbeid med mennesker med kroniske tilstander (Berge & Lang, 2011; Norsk psykologforening, u.å.). Er tilstanden sjelden og pasienten et barn, kan dette være ekstra utfordrende, både på grunn av pasientens forutsetninger og fordi mange ulike tjenester er inne i bildet (Regjeringen, 2021; Tøssebro et al., 2023).

Sjeldne diagnoser er medisinske tilstander som rammer 1: 2000 individer eller færre (EURODIS, u.å.). De er ofte medfødte og arvelige, og kan for eksempel være av metabolsk, muskulær, nevrologisk eller hematologisk natur. Diagnosen kan utgjøre et syndrom, innebære medfødte misdannelser, utviklingshemning eller gradvis funksjonstap (se Helsenorger.no for en diagnoseoversikt). Mange mennesker med sjeldne diagnoser har komplekse og sammensatte tilstander som krever tjenester både i primær- og spesialisthelsetjeneste, og tilrettelegging av tilbud i barnehage, skole, jobb og fritid. Selv om hver enkelt diagnose er sjelden, er det ikke uvanlig å ha en sjelden diagnose; cirka 320 000 personer lever med dette i Norge (Ferreira, 2019).

I den nasjonale strategien for sjeldne diagnoser skriver den norske regjeringen at kunnskapen om disse diagnosene ofte er mangelfull i helse- og omsorgstjenestene (Regjeringen, 2021). For å spre kunnskap og sikre likeverdige tjenester finnes det derfor ni landsdekkende kompetansesentre for sjeldne diagnoser i Norge (se Helsenorger.no for informasjon). Kompetansesentrene tilbyr kurs, informasjon og veiledning til både personer med diagnose, pårørende og tjenesteytere. Flere av kompetansesentrene tilbyr tverrfaglige veiledninger (heretter kalt veiledning). Dette er videokonferanser hvor personen med den sjeldne diagnosen, representanter fra personens helse- og omsorgstjenester samt pårørende er invitert. I møtet gir kompetansesenteret informasjon om den sjeldne diagnosen og mulighet til å dele erfaringer, drøfte utfordringer og finne felles løsninger.

Når et barn har en sjelden diagnose, er det foreldrene som deltar på kompetansesentrenes veiledninger og ivaretar brukerperspektivet i møte med de andre deltakerne. Barn med sjeldne diagnoser faller inn under gruppen som Helsedirektoratet beskriver at har et særskilt stort og sammensatt tjenestebehov hvor samarbeid med pårørende er sentralt (2019), men nettopp det siste beskrives som utfordrende av foreldrene selv. En litteraturgjennomgang av von der Lippe et al. (2022), som omfatter 33 kvalitative studier, viser at foreldre til barn med sjeldne diagnoser opplever langvarige og komplekse diagnostiseringsprosesser, manglende kunnskap og erfaring med diagnosen i tjenestene og manglende koordinering av tjenestene. De blir ofte sittende igjen med opplevelsen

av å ha ansvar for å formidle diagnoseinformasjon, koordinere og sørge for tilrettelegging i barnets hverdag. Men bildet er ikke kun negativt. Foreldre opplever det å møte engasjerte og støttende fagpersoner som anerkjenner kunnskapen og erfaringene deres, som en lettelse, og at det vekker tillit når fagpersoner er tydelige på egen kunnskap.

I lys av litteraturgjennomgangen til von der Lippe et al. (2022) synes det å være viktig at kompetansesentrenes veiledninger styrker foreldrene i foreldrerollen. Et sentralt bidrag kan være å sikre at foreldre har nok diagnosekunnskap. Med dette mener vi her kunnskap om diagnosens navn, symptomer, årsak, behandling, konsekvenser og forløp over tid, i tråd med modellen for sykdomsforståelse til Leventhal et al. (1992). Foreldre til barn med sjeldne diagnoser har beskrevet at de ønsker mer diagnosekunnskap for å ha et bedre grunnlag for å kunne følge opp barnets tjenester, bli bedre på å forklare diagnosen til andre (Starke & Möller, 2002), å kunne legge bedre til rette for optimal utvikling av barnets potensial (Riggan et al., 2023) og fordi ny kunnskap kan gi mestringsfølelse, takknemlighet og håp (Sørensen et al., 2012). Det mangler studier av faktorer som er relatert til foreldres kunnskap om sjeldne diagnoser, men forskning på andre diagnosegrupper som hjertefeil og diabetes viser at barnas alder, foreldres alder og utdanningsnivå er positivt assosiert med foreldres kunnskapsnivå (Cheuk et al., 2004; Çinar & Yaz, 2021; Yang et al., 2013).

Økt helsekompetanse blant foreldrene er også et ønsket utbytte av kompetansesentrenes veiledninger. Helsekompetanse forstås i denne studien som tilgangen de har på helseinformasjon og evne til å forstå, vurdere og anvende helseinformasjon og tjenester på måter som ivaretar barnas helse (World Health Organization, u.å.). Forskning på helsekompetanse blant foreldre til barn med sjeldne diagnoser mangler. Studier av foreldre til barn med sammensatte vansker og epilepsi beskriver foreldres helsekompetanse som avgjørende for hensiktsmessig samarbeid med tjenesteapparatet, av stor betydning for barnets helsetilstand og viktig for foreldres mestringsstilling i foreldrerollen (Keim-Malpass et al., 2015; Tschamper et al., 2022). Tidligere studier viser at eldre og høyere utdannede foreldre har høyere helsekompetanse enn de som er yngre og har lavere utdanning (de Buhr & Tannen, 2020).

Et annet ønskelig utbytte av kompetansesentrenes veiledninger er at foreldrene får større motivasjon og tro på egen evne til å hjelpe og påvirke livskvaliteten til sitt eget barn. Begrepet myndighet (*empowerment*) brukes i denne artikkelen om opplevd myndighet i motsetning til gitt myndighet (f.eks. gjennom lov). Foreldres myndighet kan omhandle familielivet, møter med tjenester og møter med samfunnet (f.eks. beslutningsorganer) (Koren et al., 1992). Vi har ikke funnet studier

av myndighet blant foreldre til barn med sjeldne diagnoser. En litteraturgjennomgang av forskning på foreldremyndighet i helsetjenestestrukturer beskriver at myndighet har betydning for foreldrenes involvering i daglig omsorg og symptomhåndtering, og i hvilken grad de kjemper for barnets rettigheter og tjenester (Ashcraft et al., 2019). En tidligere studie av myndighet blant foreldre til barn med cerebral parese i Norge finner at foreldres utdanningsnivå er negativt assosiert med myndighet i familielivet, og at barnets alder er positivt assosiert med myndighet i møte med samfunnet (Kalleson et al., 2020).

Kort oppsummert viser tidligere forskning at foreldre til barn med sjeldne diagnoser opplever å ha et stort ansvar med tanke på å sikre at barna har et godt tjenestetilbud, og at diagnosekunnskap, helsekompetanse og myndighet kan være av betydning for hvordan foreldre mestrer dette. Da forskningen på feltet er mangelfull, ønsker vi med denne studien å undersøke helsekompetanse og myndighet blant foreldre til barn med sjeldne diagnoser før veiledning. Vi vil undersøke hvordan dette samvarierer med barnets og foreldrenes alder, og kartlegge gruppeforskjeller med hensyn til foreldres kjønn, utdanning og økonomi. Kompetansesentrene søker å styrke kompetansen i nettverket rundt barn med sjeldne diagnoser gjennom veiledninger, men foreldres utbytte av denne tjenesten er ikke tidligere kartlagt. I denne studien ønsker vi å finne ut om foreldre opplever å ha mer diagnosekunnskap, økt helsekompetanse og styrket myndighet etter å ha deltatt i veiledning. Vi ønsker også å undersøke om det er gruppeforskjeller i det opplevde utbyttet med hensyn til foreldres kjønn, utdanning og økonomi, og om opplevd utbytte samvarierer med barnets og foreldrenes alder.

Metode

Design

Studien er en multisenterstudie, og data ble samlet inn på Frambu kompetansesenter for sjeldne diagnoser, Senter for sjeldne diagnoser (SSD) og Nasjonalt kompetansesenter for sjeldne epilepsirelaterte diagnoser (NK-SE) ved Oslo universitetssykehus (OUS) og Trenings- og rehabiliteringssenteret ved Sunnaas sykehus HF (TRS) i perioden 2020–2021. Dette er en blandet metode-studie med et pretest- og posttest design med fire målepunkter: før (T1), rett etter (T2), to måneder etter (T3) og seks måneder etter (T4) veiledning. Data fra de tre første målepunktene ble benyttet til denne studien.

Prosedyre

Prosjektet ble vurdert og godkjent av SIKT 07.07.2020 (referansenummer 60624) og av personvernombudet OUS 31.03.2020 (referansenummer 20/08079). Inklusjonskriterier var å være foreldre til et barn mellom 0 og 18 år med en sjelden diagnose og ha søkt om veiledningstjeneste fra ett av sentrene, der hovedformålet var å få informasjon om den sjeldne diagnosen. Eksklusjonskriterier var konflikt med tjenesteapparatet, akutt krise eller språklige utfordringer. Sentrene vurderte om inklusjonskriteriene ble møtt ved mottatt søknad, og aktuelle foreldre fikk tilsendt digitalt informert samtykkeskriv.

Elektronisk spørreskjema om demografiske forhold, helsekompetanse og foreldremyndighet ble tilsendt samtykkende deltakere ved T1 og skjema om helsekompetanse og foreldremyndighet ved T3. Samtykkende deltakere ble også kontaktet for deltakelse i intervju ved T3. Senterrepresentanten som var ansvarlig for veiledningen (heretter kalt veileder), fikk tilsendt elektronisk spørreskjema om veiledningen ved T2.

Deltakere

Det ble i prosjektperioden gjennomført 100 veiledninger som møtte kriteriene ved sentrene. Ved 75 av disse veiledningene ble foreldre forespurte om deltakelse. Ved 25 av søknadene om veiledning ble rekrutteringsprosedyren ikke fulgt og anledningen til å rekruttere forspilt. Av de forespurte samtykket 53 foreldre, men da fire ikke besvarte henvendelser etter samtykket og syv responderte så mangelfullt at data ikke kunne benyttes for denne studiens formål (kun demografiske spørsmål ved T1 eller kun på spørreskjema ved T3), ble det endelige antallet deltakere i studien 42 foreldre (23.8 % fedre) fra 38 familier. Responsraten var 88.0 % ved T1 ($n=37$, 24.3 % fedre), 66.7 % ved T3 ($n=28$, 21.4 % fedre) og 64.3 % ved intervju T3 ($n=27$, 11.1 % fedre). Fem av studiens deltakere (11.9 %) besvarte ikke spørreskjema ved T1 eller T3, men deltok kun på intervju ved T3. For bakgrunnsinformasjon om de samtykkende deltakerne se tabell 1.

I studien inngikk 38 veiledninger (39.5 % fra SSD, 34.2 % fra Frambu, 13.2 % fra TRS og 13.2 % fra NK-SE). For 36 av veiledningene oppga veileder informasjon om veiledningenes organisering på elektronisk spørreskjema ved T2. For informasjon om veiledningene og veilederne se tabell 1.

Tabell 1

Bakgrunnsinformasjon om deltakerne og veiledningene

| | Prosent | Gjennomsnitt (variasjon) SD |
|---|-------------------------|-----------------------------|
| Kjønn (% fedre) (<i>n</i> = 42) | 23.8 | |
| Alder i år (<i>n</i> = 41) | | 35.6 (27–54) 6.2 |
| Utdanning (<i>n</i> = 42) | | |
| Høyere utdanning over fire år | 31.0 | |
| Høyere utdanning inntil fire år | 40.5 | |
| Videregående skole | 28.6 | |
| Grunnskole | 0.0 | |
| Økonomisk situasjon (<i>n</i> = 42) | | |
| Svært god | 2.4 | |
| God | 52.4 | |
| Middels | 45.2 | |
| Dårlig | 0 | |
| Barnets alder (<i>n</i> = 42) | | 5.6 (1–16) 4.0 |
| Tid siden diagnose (<i>n</i> = 42) | | 3 (0–11) 3.1 |
| Veiledningene (<i>n</i> = 35) | | |
| Antall deltakere | | 11.8 (5–21) 3,3 |
| Varighet totalt (min) | | 95,3 (30–180) 39.1 |
| Varighet info fra senteret i minutter | | 53.7 (0–150) 32.8* |
| Varighet info fra tjenester i minutter | | 8.3 (0–40)12.8 |
| Varighet drøfting i minutter | | 32.1 (0–70)18.4 |
| Tjenester representert S/K/O/A/B** | 36.1/88.9/91.7/30.6/2.8 | |
| Veileders fagbakgrunn M/P/F/Psy*** (<i>n</i> = 34) | 41.2/29.4/23.5/2.9 | |

*Ved en anledning ble diagnoseinformasjon fra kompetansesenteret ikke gitt separat, men som ledd i drøfting.

**S = spesialisthelsetjeneste, K = kommunehelsetjeneste, O = barnehage eller skole, A = avlastning eller assistanse, B = barnevern

***M = lege, sykepleier eller ernæringsfysiolog, P = spesialpedagog og vernepleier, F = fysioterapeut eller ergoterapeut, Psy = psykolog

Intervensjon

Deltakerne deltok i veiledningstjeneste over videokonferanse. Veiledningene ble gjennomført på følgende måte: 1) Foreldre eller tjenesteapparat søkte veiledning. 2) Tjenesteytere rundt barnet ble invitert til en veiledning over Helsenet. 3) Fagperson fra senteret ledet veiledningen, som inneholdt a) informasjon om den sjeldne tilstanden fra sjeldensenter, b) eventuell informasjon fra barnets tjenester om barnet og c) drøfting av problemstillinger.

Måleinstrumenter

Intervju om utbytte av veiledningen

For denne studien ble det utviklet et semistrukturert intervju for å kartlegge foreldres opplevelse av økning i egen kunnskap om den sjeldne diagnosen og endring i tjenestetilbudet til barnet etter veiledningen. Intervjuets første del var inspirert av modellen for sykdomsforståelse til Leventhal et al. (1992) og organisert rundt dimensjonene navn, symptomer, kroppsaffeksjon, behandling/tiltak, konsekvenser og tidslinje (diagnosens utvikling over tid). For hver av dimensjonene ble det stilt følgende spørsmål: 1) Har du fått ny kunnskap om (dimensjonen)? 2) Hva slags ny kunnskap? 3) Har den nye kunnskapen betydning for din rolle som forelder og hvordan? Intervjuets andre del omhandlet tjenestene som hadde vært representert på veiledningen. For hver tjeneste ble det stilt spørsmål om 1) nye kartlegginger/observasjoner/utredninger, 2) nye behandlinger, 3) nye tiltak, 4) nye mindre tilrettelegginger, 5) endringer i samarbeid og relasjon. Foreldrene ble oppfordret til å snakke og reflektere fritt om opplevde endringer.

Spørreskjema om helsekompetanse

Foreldres helsekompetanse ble kartlagt med foreldreversjonen av Health Literacy Questionnaire (HLQ; Osborne et al., 2013). HLQ består av 21 spørsmål som dekker ni skalaer (for spesifisering av skalaene se tabell 2 kolonne a). Skalaene inneholder fire til ni utsagn. For de første fem skalaene bes deltakerne om å indikere nivå av enighet på en skala fra 1 til 4 (sterkt uenig til sterkt enig). De resterende skalaene inneholder utsagn om egen kompetanse og kan gis en av følgende fem skårer: klarer ikke, veldig vanskelig, ganske vanskelig, ganske lett, veldig lett. God reliabilitet, prediktiv validitet og innholds-validitet er rapportert, også i norske populasjoner (Wahl et al., 2024).

Spørreskjema om foreldremyndighet

Foreldres myndiggjøring ble kartlagt med Family Empowerment Scale (FES; Koren et al., 1992). Skjemaet kartlegger foreldrenes myndighet på tre områder: familieliv, tjenesteapparat og samfunnet. FES består av 34 utsagn som skåres på en fempunkts likertskala fra aldri (1) til veldig ofte (5). God

reliabilitet og innholdsvaliditet er rapportert (Singh et al., 1995), også i norske studier (Kalleeson et al., 2020).

Demografiske data og data om veiledningen

Demografiske variabler kartlagt ved T1 som ble benyttet i denne studien, var foreldres alder, kjønn, utdanning, økonomi, barnets alder og tid siden diagnose. Informasjon om veiledningen kartlagt ved T2 som ble benyttet i denne studien, er tidsbruk, antall deltakere, tjenester representert og veileders fagbakgrunn.

Analyser

Analyser av intervjudata – kunnskap

Deltakernes opplevelse av økning i egen kunnskap etter veiledningen ble analysert ved at førsteforfatter (TMV) leste gjennom deltakernes svar på del 1. Basert på foreldrenes svar ble det for hver av sykdomsdimensjonene (Leventhal et al., 1992) registrert i en SPSS-fil om foreldrene bekreftet eller avkreftet å ha fått ny kunnskap (verifisert gjennom at de beskrev hva), og om den nye kunnskapen var betydningsfull for foreldrerollen. Deskriptive statistiske analyser ble så gjennomført.

Analyser av intervjudata – helsekompetanse

Deltakernes opplevelse av økning i egen helsekompetanse etter veiledningen ble analysert med en rettet innholdsanalyse av intervjuenes del 1 og 2. En tilpasning av Osborne et al.'s (2013) kategorier for helsekompetanse utgjorde forhåndsbestemte kategorier i analysen, og «turer» (definert som den perioden man har eksklusiv rett til å ha ordet i en samtale) hvor deltakeren uttrykte økt helsekompetanse i tråd med disse kategoriene, ble kodet. Analysens trinn var: 1) Konsensuskoding ved forfatterne US og TMV av to intervjuer for å tilpasse kodene og etablere enighet. For beskrivelse av koder og endringer som ble gjort, se tabell 2 kolonne a, b og c. 2) Reliabilitetskoding ved forfatterne US og TMV av fem intervjuer med tilfredsstillende samsvar mellom koderne ($k = 0.685$). 3) Seksten intervjuer ble fordelt mellom TMV og US for koding. 4) Intervjuene gjennomført ved T4 ($n = 4$) ble konsensuskodet av forfatterne MSWF og JUM og gjennomgått av TMV. Resultatene av innholdsanalysen ble kvantifisert ved at antallet turer kodet inn i hver kategori ble telt opp og registrert i SPSS.

Tabell 2

Opprinnelige og endelige kategorier for helsekompetanse med spesifisering av endringer

| a) Kategori i Osborne et al. (2013)* | b) Beskrivelse av endring i studien | c) Kategori som formulert i studien |
|---|--|--|
| (1) Føle seg forstått og støttet av helsepersonell | «Helsepersonell» endret til «tjenesteytere» | Føle seg forstått og støttet av tjenesteytere |
| (2) Ha tilfredsstillende informasjon til å kunne ivareta barnets helse | «... og funksjon» lagt til for å omfatte kognisjon, språk og sosialt liv | Ha tilfredsstillende informasjon til å kunne ivareta barnets helse og funksjon |
| (3) Kunne aktivt ivareta barnets helse | Som for 2 | Kunne aktivt ivareta barnets helse og funksjon |
| (4) Ha sosial støtte for helse | Som for 2 | Sosial støtte for helse og funksjon |
| (5) Å kunne vurdere helseinformasjon | «Helseinformasjon» endret til «diagnoseinformasjon» for å omfatte pedagogiske, psykologiske og sosialmedisinske aspekter | Å kunne vurdere diagnoseinformasjon |
| (6) Å kunne aktivt engasjere seg med helsepersonell | «Helsepersonell» endret til «tjenesteytere» | Å kunne aktivt engasjere seg med tjenesteytere |
| (7) Å kunne navigere i helsetjenesten | «Helsetjenesten» endret til «tjenesteapparatet» | Å kunne navigere i tjenesteapparatet |
| (8) Evne til å finne god helseinformasjon | Som for 5 | Evne til å finne god diagnoseinformasjon |
| (9) Å kunne forstå helseinformasjon bra nok til å vite hva man skal gjøre | Som for 5 | Å kunne forstå diagnoseinformasjon bra nok til å vite hva man skal gjøre |

*tilsvarer skalaene i HLQ

Statistiske analyser

Alle kvantitative data ble analysert med IBM SPSS 25. Analyse av utfallsvariablenes fordeling viste at forutsetningene for parametriske tester var oppfylt. Grufforskjeller ble undersøkt med uavhengig t-test og samvariasjon med Pearson korrelasjon. Endringer i helsekompetanse og myndighet fra T1 til T3 ble undersøkt ved å bruke paret t-test. Effektstørrelsen ble beregnet med Cohens d (Cohen, 1988).

Antatt tilfeldig manglende data ble behandlet som manglende, og kun komplette datasett ble benyttet for de aktuelle analysene. Manglende data som ikke var tilfeldig, ble imputert. Dette var tilfellet ved ett ledd i FES, hvor en systematisk feil hadde skjedd i det elektroniske skjemaet i skalaen for familieliv og svar på ett utsagn manglet for alle deltakerne. Gjennomsnittsskåren for skalaen for hver deltaker ble imputert for det manglende leddet i tråd med FES skåringsmanual.

I fire tilfeller deltok begge foreldrene i en familie i denne studien. Analyser av kjønnsforskjeller ble derfor gjennomført både på det totale utvalget og på et utvalg der disse fire familiene var utelatt for å ta hensyn til eventuelle effekter av familietilhørighet.

Resultater

Samvariasjoner i datamaterialet før veiledning

Barnets alder korrelerte signifikant negativt med foreldrenes totale HLQ-skår, HLQ-skår kategori 1 «Føle seg forstått og støttet av helsepersonell» og skår på kategori 7 «Å kunne navigere i helsetjenesten» og med total helsekompetanse før veiledningen. Se tabell 3 for detaljer.

Total FES-skår korrelerte signifikant positivt med total helsekompetanse. Total HLQ-skår korrelerte signifikant positivt med alle FES-kategorier. Total FES-skår korrelerte signifikant positivt med alle HLQ-kategorier, men ikke med HLQ-kategori 3 «Kunne aktivt ivareta barnets helse og funksjon» og 6 «Å kunne aktivt engasjere seg med tjenesteytere». FES-kategori 1 «myndighet i familielivet» korrelerte signifikant positivt med alle HLQ-kategorier, men ikke med kategori 3 og 6 (definert over). FES-kategori 2 «myndighet i møte med tjenester» korrelerte signifikant positivt med alle HLQ-kategorier, men ikke med kategori 6 (som definert over) og 9 «Å kunne forstå helseinformasjon bra nok til å vite hva man skal gjøre». FES-kategori 3 «myndighet i møte med samfunnet» korrelerte signifikant positivt med alle HLQ-kategorier, men ikke med kategori 1 «Føle seg forstått og støttet av helsepersonell», 4 «Ha sosial støtte for helse», 6 og 9 (definert over).

Tabell 3

Samvariasjon mellom foresattes alder, barnets alder og helsekompetanse og myndighet før deltakelse i veiledning (n = 37)

FES1

| | Alder | AlderB | FES1 | FES2 | FES3 | HLQtot | HLQ1 | HLQ2 | HLQ3 | HLQ4 | HLQ5 | HLQ6 | HLQ7 | HLQ8 | HLQ9 |
|--------|-------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|-------|------|------|------|------|------|------|------|
| Alder | – | | | | | | | | | | | | | | |
| AlderB | .45** | – | | | | | | | | | | | | | |
| FES1 | .05 | –.07 | – | | | | | | | | | | | | |
| FES2 | –.17 | –.04 | .70*** | – | | | | | | | | | | | |
| FES3 | .02 | –.06 | .45** | .60*** | – | | | | | | | | | | |
| HLQtot | .20 | –.10 | .77*** | .26 | .70*** | – | | | | | | | | | |
| HLQ1 | –.22 | –.34* | .64*** | .77*** | .50** | .45** | – | | | | | | | | |
| HLQ2 | –.09 | –.40* | .40* | .40* | .35* | .28 | .71*** | – | | | | | | | |
| HLQ3 | –.29 | –.29 | .60*** | .60*** | .48** | .43** | .79*** | .48** | – | | | | | | |
| HLQ4 | .09 | –.05 | .26 | .26 | .37* | .40* | .28 | .21 | .20 | – | | | | | |

| | Alder | AlderB | FES | FES1 | FES2 | FES3 | HLQ | HLQtot | HLQ1 | HLQ2 | HLQ3 | HLQ4 | HLQ5 | HLQ6 | HLQ7 | HLQ8 | HLQ9 |
|------|-------|--------|-------|-------|--------|------|--------|--------|---------|------|--------|-------|--------|--------|--------|------|------|
| HLQ4 | .01 | -.15 | .39* | .39* | .39* | .23 | .69*** | .44** | .55*** | .15 | - | | | | | | |
| HLQ5 | -.13 | -.10 | .44** | .44** | .53*** | .41* | .53*** | .36* | .28 | .34* | .28 | - | | | | | |
| HLQ6 | -.09 | -.28 | .25 | .25 | .17 | .14 | .72*** | .54*** | .599*** | .01 | .42** | .06 | - | | | | |
| HLQ7 | -.13 | -.43* | .42** | .42** | .34* | .35* | .92*** | .61*** | .68*** | .19 | .59*** | .42* | .76*** | - | | | |
| HLQ8 | -.07 | -.01 | .45** | .45** | .41* | .37* | .71*** | .32 | .58*** | .06 | .44** | .49** | .45** | .65*** | - | | |
| HLQ9 | .08 | .04 | .39* | .39* | .25 | .23 | .77*** | .46** | .46** | .05 | .20* | .35* | .65*** | .73*** | .86*** | - | |

Merknad. Alder = foresattes alder, AlderB = barnets alder, FES = Family Empowerment Scale, HLQ = Health Literacy Questionnaire, tot = totalskår. Tallene bak FES og HLQ i tabellen indikerer kategori slik de er spesifisert i artikkelen.

* $p = 0.1$ ** $p = 0.05$ *** $p = 0.001$

Gruppeforskjeller i utfallsmålene før veiledning

Foreldre med høyere utdanning inntil fire år hadde en signifikant lavere skår enn foreldre med over fire års høyere utdanning på HLQ-kategori 1 «Føle seg forstått og støttet av helsepersonell» ($df = 24$, $p = .043$, $d = 2.14$) og kategori 7 «Å kunne navigere i helsetjenesten» ($df = 24$, $p = .013$, $d = 4.31$).

Det var ingen gruppeforskjeller i HLQ-skårer med hensyn til økonomi eller kjønn ved T1.

Foreldre med høyere utdanning inntil fire år hadde signifikant lavere skår på FES-kategori 3 «myndighet i møte med samfunnet» enn foreldre med mer enn fire års høyere utdanning ($df = 24$, $p = .025$, $d = 0.66$). Det var ingen gruppeforskjeller i FES-skårer med hensyn til kjønn eller økonomi ved T1.

Foreldres diagnosekunnskap etter veiledning

Av intervjudeltakerne ($n = 27$) rapporterte 70 % ($n = 19$) å ha fått ny kunnskap om minimum en diagnosedimensjon. Deltakerne rapporterte om økning i kunnskap på gjennomsnittlig 1.8 diagnosedimensjoner (variasjonsbredde 0–6, $SD 1.7$). For informasjon om andelen deltakere som opplever økning i kunnskap om ulike dimensjoner, og andelen ny kunnskap av betydning for ivaretagelse av barnet, se tabell 4.

Tabell 4

Andelen av deltakerne ($n = 27$) som opplever økning i kunnskap om ulike dimensjoner av diagnosen etter veiledning, og opplevd betydning for ivaretagelse av barnet

| Diagnose- dimensjon | Ny kunnskap % (n) | Eksempel | Ny kunnskap har betydning %* (n) |
|---------------------|-------------------|---|----------------------------------|
| Symptomer | 44 (12) | «Før veiledningen da kunne jeg veldig lite, så nå fikk jeg jo info om hva jeg skal se etter – slapp, kvalm, vondt i hodet, alt dette, og det syntes jeg var veldig fint (...)» | 83 (10) |
| Behandling | 33 (9) | «(...) i forhold til medikamenter, viktigheten og hvor farlig det er da og konsekvenser av om at hen ikke tar medisinene sine, og at hen alltid må ha dem med seg (...)» «(...) i forhold til hvordan en kan tilrettelegge hverdagen slik at hen ikke ... at hens hverdag blir lettere i forhold til smerter og i forhold til fysioterapi og tøyning og trening.» | 78 (7) |
| Konsekvenser | 33 (9) | «Ja, det ble jo sagt hva vi kan forvente (...) At det ikke er noe vi kan gjøre med det. Det er ofte forventet at for eksempel hen vil slite litt mer med skole, lesing, lære nye ting.» | 89 (8) |
| Kroppsaffeksjon | 26 (7) | «Ja, vi gjorde det. Det er jo lungene også som er berørte, de også, ettersom de har operert og dratt litt i ting og tang og ...» | 57 (4) |
| Årsak | 18.5 (5) | «Nei, det var mer, vi vet at det handler om gen, men det ble veldig godt forklart hvilke gener og i forhold til den problematikken der da – jeg er ikke så god på terminologien der. Jeg føler at vi økte forståelsen noe i hvert fall.» | 40 (2) |
| Navn | 15 (4) | «Altså, jeg tror ikke jeg har brukt ordet 'delesjon' før etter den veiledningen. Det ble en slik ny – et nytt språk, ja.» | 50 (2) |
| Tidslinje | 11 (3) | «Vi ble kanskje klar over at hen må jevnlig testes da for å teste hvordan ujevn modning og utvikling går, og kanskje vi bare fikk litt sånn innføring i at det at man vet | 100 (3) |

| Diagnose- dimensjon | Ny kunnskap % (n) | Eksempel | Ny kunnskap har betydning %* (n) |
|---------------------|-------------------|---|----------------------------------|
| | | ikke helt hvordan det går med disse barna.» | |

*andel av de som rapporterer ny kunnskap

Antallet dimensjoner deltakerne opplevde å ha fått økt kunnskap om, var ikke signifikant korrelert med barnas alder eller foreldres alder, HLQ- eller FES-skårer. Det var heller ingen gruppeforskjeller med hensyn til kjønn, økonomi eller utdanning.

Endring i helsekompetanse etter veiledning

Endring i helsekompetanse som beskrevet i intervju

Av de 27 deltakerne som ble intervjuet, beskrev 98 % ($n = 24$) en opplevd positiv endring i egen helsekompetanse på minimum en dimensjon. For eksempler på beskrivelser av økt helsekompetanse for de ulike dimensjonene og andelen av deltakerne som beskrev endring, se tabell 5.

Tabell 5

Eksempel på beskrevet endring på helsekompetansedimensjonene og andel deltakere som beskriver endring (n= 27)

| Kategori | Eksempel fra intervju | Andel som beskriver økning % (n) |
|---|--|----------------------------------|
| 1. Føle seg forstått og støttet av tjenesteytere | «Hen blir jo mer tatt på alvor hos fastlegen nå [etter veiledning], og vi har planlagt hyppigere kontroller av vekt på helsestasjonen.» | 59 (16) |
| 2. Ha tilfredsstillende informasjon til å kunne ivareta barnets helse og funksjon | «De [veiledere] har fått meg til å forstå hva det er helt konkret, uten at fantasien min trenger å gå ut og lage skrekksenarioer. Det ble håndgripelig.» | 70 (19) |
| 3. Kunne aktivt ivareta barnets helse og funksjon | «Hen setter lett i halsen, så det er lurt at jeg gir ham god tid til å spise.» | 66.6 (18) |
| 4. Ha sosial støtte | «Besteforeldrene ble også med [på veiledningen], fordi det er tungt å være den eneste som vet. For jeg er jo ikke i lag med faren, og samboeren min har jeg aldri involvert (...). Så jeg synes at det til tider har vært litt tungt å sitte med all informasjonen alene og må gjenfortelle alt hele tiden (...). Så det er utrolig deilig at andre har fått hørt hvordan alt er.» | 3.7 (1) |
| 5. Å kunne vurdere helseinformasjon | | 0 (0) |

| Kategori | Eksempel fra intervju | Andel som beskriver økning % (n) |
|---|---|----------------------------------|
| 6. Å kunne aktivt engasjere seg med tjenesteytere | «Jeg fikk beskjed [under veiledningen] om at jeg måtte presse på [for å få en tjeneste], presse skikkelig på, og det har jeg gjort.» | 29.6 (8) |
| 7. Å kunne navigere i tjenesteapparatet | «Veiledningen er jo betryggende da for meg som mor, at vi har hatt et møte da med noen som kan det ordentlig, så det er en positiv ting. At vi kan ringe dem og ha kontakt med dem om det skjer noe.» | 25.9 (7) |
| 8. Evne til å finne god diagnoseinformasjon | | 0 (0) |
| 9. Å kunne forstå diagnoseinformasjon bra nok til å vite hva man skal gjøre | | 0 (0) |

Foreldres beskrevne endring i helsekompetanse målt i antall «turer» ble ikke funnet signifikant korrelert med barnas alder eller foreldrenes alder, FES- eller HLQ-skårer. Det var heller ingen gruppeforskjeller i uttrykk for økt helsekompetanse med hensyn til foreldrenes kjønn, økonomi eller utdanning.

Endring i helsekompetanse rapportert med HLQ

Paret *t*-test viste ingen signifikant endring i total helsekompetanse eller på noen av underkategoriene fra T1 til T3.

Endring i total helsekompetanse ble funnet signifikant negativt korrelert med HLQ-skår på kategori 4 «Ha sosial støtte for helse» ($r = -.399, p = .039$), 7 «Å kunne navigere i helsetjenesten» ($r = -.390, p = .044$) og total helsekompetanse ($r = -.432, p = .024$) ved T1.

Ingen andre signifikante korrelasjoner med foreldres alder, barnets alder, eller HLQ- og FES-skårer ved T1 ble funnet, og det var ingen gruppeforskjeller med hensyn til kjønn, økonomi eller utdanning.

Endring i opplevd myndighet i foreldrerollen

Paret *t*-test viste ingen signifikant endring i total myndighet, myndighet i familielivet, myndighet i møte med tjenester eller i møte med samfunnet fra T1 til T3.

Foreldre med videregående skole og de med høyere utdanning inntil fire år rapporterte en signifikant større endring i total myndighet fra T1 til T3 enn foreldre med mer enn fire års høyere utdanning (hhv. $df = 14, p = .019, d = 0.9$ og $df = 18, p = .049, d = 0.73$). En paret *t*-test basert på et underutvalg ($n = 20$) med deltakere med inntil fire års høyere utdanning, videregående og grunnskole viste signifikant positiv endring fra T1 til T3 i total myndighet ($df = 19, p = .02, d = 0.84$).

Endring i total myndighet fra T1 til T3 var signifikant negativt korrelert med skåren på FES-skalaen «tjenester» ($r = -.483, p = .009$) og total myndighet ($r = -.423, p = .025$) ved T1. Ingen andre signifikante korrelasjoner mellom endring i FES-skår fra T1 til T3 og barnets alder, foreldres alder, HLQ- og FES-skårer ved T1 ble funnet, og det var ingen gruppeforskjeller med hensyn til kjønn eller økonomi.

Diskusjon

I denne studien fant vi at barnas alder og foreldrenes utdanningsnivå var relatert til foreldres helsekompetanse, og at utdanningsnivå også var relatert til opplevd myndighet. Foreldrene beskrev i intervjuer økt kunnskap om diagnosen og økt helsekompetanse som resultat av veiledningen. Ingen signifikant endring i helsekompetanse fra før til etter veiledning ble vist ved bruk av HLQ, men de med lav helsekompetanse før veiledning så ut til å ha størst utbytte. En undergruppe med foreldre, de med inntil fire års utdanning eller lavere, hadde en signifikant positiv endring i myndighet fra før til etter veiledning målt med FES.

Tjenesteorganisering og helsekompetanse

At foreldre til yngre barn rapporterte høyere helsekompetanse enn de med eldre barn, spesielt når det gjaldt å orientere seg i tjenestene og føle seg forstått og støttet av helsepersonell, kan kanskje forklares av organiseringen av tjenester til barn under skolealder i Norge og den relative kompleksiteten i tjenestene til eldre barn. På helsestasjoner har småbarnsfamilier tilgang til hjemmebesøk, individuelle konsultasjoner og gruppeveiledninger med fagpersoner (sykepleier, lege og fysioterapeut) (Helsedirektoratet, 2022). Helsestasjoner har også rutiner for å samarbeide med kommunale tjenester og spesialisthelsetjenesten (Folkehelseinstituttet, 2010). Også barnehager, som de fleste norske barn går i, har en høy andel pedagoger og tilgang til kommunale pedagogiske tjenester ved behov (Gulbrandsen & Eliassen, 2013). Når barna blir eldre, derimot, er bildet mer komplisert. Overganger, som fra barnehage til skole, er en spesielt sårbar fase for familier til barn med funksjonsnedsettelse, hvor gode relasjoner kan brytes og nye instanser og fagpersoner kommer inn i bildet (Haugen et al., 2012). Med alder øker ofte barnas behov for tjenester (Demiri & Gundersen, 2016), og dette tjenestetilbudet blir ofte sammensatt, fragmentert og dårlig koordinert for barn med sjeldne diagnoser (von der Lippe et al., 2022).

Høyt utdannet er en sårbar posisjon

I denne studien beskrev foreldre med høyere utdanning inntil fire år å oppleve mindre forståelse og støtte fra helsepersonell, større utfordringer med å navigere i tjenestene og mindre tro på egen evne til å påvirke i samfunnet til det beste for barnet, enn de med både lavere og høyere utdanning. Dette er til dels i tråd med tidligere studier som beskriver at de høyest utdannede har høyest helsekompetanse (Buhr & Tannen, 2020), best forutsetning for å være talspersoner for barnas behov (Taylor et al., 2019) og å være mer involvert i demokratisk medvirkning (Barstad & Sandvik, 2015) enn lavere utdannede.

At foreldre med inntil fire års høyere utdanning ikke opplever seg mer myndige og kompetente enn de lavest utdannede, slik man kan forvente basert på tidligere studier (f.eks. Buhr & Tannen, 2020; Kalleson et al., 2020), kan kanskje skyldes yrkeserfaring som gir relevant fagkunnskap (f.eks. sykepleier, vernepleier eller pedagog), men ikke samtidig autoritet eller kontakter som spesialister. Tidligere forskning har vist at spesialister i helsevesenet kommuniserer best med pasienter med tilsvarende sosioøkonomiske status som dem selv (Verlinde et al., 2012). De høyest utdannede foreldrene kan også ha erfaringer og kontaktflater som utgjør en fordel med tanke på å orientere seg i systemet (Taylor et al., 2019). Satt på spissen kan foreldre med høyere utdanning inntil fire år ha høyere forventninger basert på utdanning og erfaringer i yrkeslivet enn de lavere utdannede, men likevel ikke komme i posisjon til å oppleve seg like mestrende og hørt som de høyest utdannede.

Veiledning gir viktig utbytte

Studiens resultater antyder at kompetansetjenestene når et viktig mål med sine veiledninger; foreldre opplever å få mer kunnskap om den sjeldne diagnosen, noe tidligere forskning har dokumentert at de ønsker (Sørensen et al., 2012). Det var likevel begrenset hvor mange dimensjoner den nye kunnskapen var om, og det varierte hvor betydningsfull informasjonen var for foreldrene. Ny kunnskap om diagnosens årsak ble ikke beskrevet som like betydningsfull som ny kunnskap om andre dimensjoner. Foreldrene i denne studien hadde fått formidlet barnets diagnose for gjennomsnittlig tre år siden. Vårt funn kan kanskje forklares av tidligere forskning, som beskriver at å få en genetisk årsaksforklaring oppleves viktig for foreldre ved diagnosetidspunkt, men at de skifter fokus til behandling og håndtering av symptomer når diagnosen er satt (Mollison et al., 2020). Diagnosens utvikling over tid var tilsynelatende et betydningsfullt tema for foreldrene i vår studie. Likevel hadde få fått ny kunnskap om denne dimensjonen i veiledningen. Dette er i tråd med tidligere forskning, som har vist at foreldre til barn med sjeldne diagnoser ønsker å snakke om fremtid og prognose, men

at kommunikasjonen med tjenesteytere ikke i tilstrekkelig grad berører temaet (von der Lippe et al., 2022). Det kan stilles spørsmål ved hvorvidt informasjonen som gis om den sjeldne diagnosen under kompetansesentrenes veiledning, er spesielt tilpasset foreldrenes behov, eller om den er generell for å treffe den varierte gruppen med deltakere.

Resultatene i denne studien antyder også at kompetansesentrenes veiledninger øker helsekompetansen for foreldre som trenger det, og på områder som er viktige. Den største endringen i helsekompetanse ble funnet blant foreldre som skåret lavt før veiledning. Under intervjuene beskrev foreldre også mest endringer med hensyn til å ha informasjon nok til å kunne ivareta barnets funksjon og ha kunnskap om hvordan man aktivt kan gjøre dette, noe som er beskrevet som svært viktig for foreldre også i tidligere studier (Riggan et al., 2023; Starke & Möller, 2002).

Studien indikerer at kompetansesentrenes veiledning også kan påvirke foreldres opplevelse av myndighet positivt, da spesielt de med lav myndighet i utgangspunktet eller de med utdanning opp til fire år. Lavere utdannede er en gruppe foreldre som i tidligere studier er funnet å ha liten tro på egen evne til påvirkning og endring (Nachshen, 2005). Myndighet er viktig for at foreldre skal våge å ta sin kunnskap og kompetanse i bruk og kjempe om hjelp, slik foreldre til barn med sjeldne diagnoser er beskrevet å ofte måtte gjøre (von der Lippe et al., 2022). At sentrenes veiledning ser ut til å styrke foreldrenes opplevelse av myndighet er derfor veldig lovende.

Metodologiske utfordringer

Designet på denne studien var relativt komplekst, og variablene som ble inkludert, var mange med tanke på det lille utvalget. Studien ble også gjennomført under koronapandemien, en periode da personer med funksjonsnedsettelse led under spesielt store belastninger med hensyn til tjenestetilbud, psykisk helse og sårbarhet for smitte (Croft & Fraser, 2022). Til sammen kan dette ha påvirket både rekrutteringen og begrenset resultatenes generaliserbarhet.

Få fedre deltok i denne studien. Mødre har ofte mer kontakt med tjenesteapparatet enn fedre når et barn har en funksjonsnedsettelse (Docherty & Dimond, 2018; Vatne et al., 2023), noe som kan innebære mer kunnskap og helsekompetanse. Manglende kjønnsforskjeller i denne studien kan kanskje forklares av lavt antall deltagende fedre.

Familier med lav utdanning og dårlig økonomi var underrepresentert i denne studien. Dette er grupper vi basert på tidligere forskning kan anta har både lavere kunnskap, helsekompetanse og myndighet enn de med høyere sosioøkonomisk status (Buhr & Tannen, 2020; Ç#nar & Yaz, 2021; Kalleson et al., 2020). Lavt utdannede anses som en sårbar gruppe i forskning, da det kan

innebære en redusert mulighet til å forstå hva deltakelse i forskning innebærer (Ruyter et al., 2008). Studiens rekrutteringsprosedyrer hvor mange parter var involvert, kan ha forhindret at god og tilpasset informasjon om studien nådde ut til alle familier.

Denne studien er den første til å utforske helsekompetanse og myndighet blant foreldre til barn med sjeldne diagnoser ved bruk av skjemaene HLQ og FES. Enkelte korrelasjoner mellom skalaer i FES og kategorier i HLQ utfordrer skjemaenes validitet.

Et eksempel er at familielivskalaen i FES, med spørsmål om evne til å forstå og håndtere barnets utfordringer, ikke korrelerer som forventet med HLQ-kategorien «Kunne aktivt ivareta barnets helse». Psykometriske aspekter ved skjemaene bør utforskes i fremtidig forskning.

Det kan se ut som om HLQ ikke fanger opp kompetanse med hensyn til alle aspekter som er relevante for foreldre til barn med sjeldne diagnoser i ivaretagelse av barnet. I intervjuer hvor definisjonen av helsekompetanse ble endret ved for eksempel å inkludere begrepet «funksjon» i stedet for kun «helse», ble det rapportert endringer i helsekompetanse som ikke ble fanget opp av HLQ. Definisjonen av helsekompetanse og kartlegging av dette innen feltet «sjeldne diagnoser» bør være i fokus i fremtidig forskning.

Kliniske implikasjoner

Psykologer eller andre tjenesteytere som arbeider med familier med barn med komplekse og sammensatte tilstander, bør vurdere å invitere til møter hvor både tjenesteytere og foreldre er til stede, da dette kan styrke foreldres forutsetninger for å ivareta barnet.

Ved gjennomføring av felles samarbeidsmøter eller veiledning kan arrangør maksimalisere foresattes utbytte ved å i forkant kartlegge hvilke områder foreldre ønsker belyst eller trenger å få styrket sin kunnskap eller kompetanse om.

Psykologer eller andre tjenesteytere bør være bevisst på utfordringene foreldre kan oppleve i møte med tjenesteapparatet etter som barna blir eldre, og på at et godt tverrfaglig møte kan styrke dem i perioder med endringer i barnas helse eller tjenestetilbud.

Foreldre til barn med komplekse og sammensatte tilstander har komplekse foreldreoppgaver. Gode tverrfaglige møter kan gjennomføres som en helsepsykologisk intervensjon for å styrke foreldre som har lite kunnskap, lav helsekompetanse og myndighet i sin rolle.

Referanser

- Ashcraft, L.E., Asato, M., Houtrow, A.J., Kavalieratos, D., Miller, E. & Ray, K.N. (2019). Parent empowerment in pediatric healthcare settings: a systematic review of observational studies. *The Patient-Patient-Centered Outcomes Research*, 12, 199–212.
- Barstad, A. & Sandvik, L. (2015). Deltaking, støtte, tillit og tilhørighet. En analyse av ulikhet i sosiale relasjoner med utgangspunkt i levekårsundersøkelsen. (SSB rapport 2015/51). Statistisk sentralbyrå.
- Berge, T. & Lang, N. (2011). Manifest for klinisk helsepsykologi i Norge. *Tidsskrift for Norsk psykologforening*, 48(4), 323–331.
- Cheuk, D.K. L., Wong, S.M. Y., Choi, Y.P., Chau, A.K. T. & Cheung, Y.F. (2004). Parents' understanding of their child's congenital heart disease. *Heart*, 90(4), 435–439.
- Cohen, J. (1988). Set Correlation and Contingency Tables. *Applied Psychological Measurement*, 12(4), 425–434.
- Ç#nar, D. & Yaz, #.B. (2021). Parents' awareness of type 1 diabetes: knowledge status. *Progress in Health Sciences*, 11(1), 97–103.
- Croft, S. & Fraser, S. (2022). A scoping review of barriers and facilitators affecting the lives of people with disabilities during COVID-19. *Frontiers in Rehabilitation Sciences*, 2, 784450.
- de Buhr, E. & Tannen, A. (2020). Parental health literacy and health knowledge, behaviours and outcomes in children: a cross-sectional survey. *BMC Public Health*, 20, 1 - 9.
- Demiri, A.S. & Gundersen, T. (2016). *Tjenestetilbudet til familier som har barn med funksjonsnedsettelse* (NOVA rapport 7/2016). Norsk institutt for forskning om oppvekst, velferd og aldring.
- Docherty, F. & Dimond, R. (2018). «Yeah that made a big difference!»: The importance of the relationship between health professionals and fathers who have a child with Down syndrome. *Journal of Genetic Counseling*, 27(3), 665–674.
- EURORDIS. (u.å). *What is a rare disease?* Hentet 25. april 2024 fra
- Ferreira, C.R. (2019). The burden of rare diseases. *American journal of medical genetics Part A*, 179(6), 885–892.
- Folkehelseinstituttet. (2010). *Utvikling av nasjonalt kvalitetssystem for primærhelsetjenesten – forebyggende helsetjenester*. Nasjonalt kunnskapssenter for helsetjenesten. <https://>

- Gulbrandsen, L. & Eliassen, E. (2013). *Kvalitet i barnehager. Rapport fra en undersøkelse av strukturell kvalitet høsten 2012* (NOVA rapport 1/2013). Norsk institutt for forskning om oppvekst, velferd og aldring.
- Haugen, G.M. D., Hedlund, M. & Wendelborg, C. (2012). «Det går ikke an å bruke seg sjøl både på retta og vranga». Om helsebelastning, sårbarhet og forebygging i familier med barn med funksjonsnedsettelse. (SINTEF rapport). NTNU Samfunnsforskning AS.
- Helsedirektoratet. (2019). *Oppfølging av personer med store og sammensatte behov* (veileder).
- Helsedirektoratet. (2022). *Helsestasjonsprogrammet 0–5 år* (retningslinje).
- Helsenorge. (u.å.). *Sjeldne diagnoser*. Hentet 14. august 2024 fra
- Kalleson, R., Jahnsen, R. & Østensjø, S. (2020). Empowerment in families raising a child with cerebral palsy during early childhood: Associations with child, family, and service characteristics. *Child: care, health and development*, 46(1), 19–27.
- Keim-Malpass, J., Letzkus, L.C. & Kennedy, C. (2015). Parent/caregiver health literacy among children with special health care needs: a systematic review of the literature. *BMC Pediatrics*, 15, 1–10.
- Koren, P.E., DeChillo, N. & Friesen, B.J. (1992). Measuring empowerment in families whose children have emotional disabilities: A brief questionnaire. *Rehabilitation Psychology*, 37, 305–321.
- Leventhal, H., Diefenbach, M. & Leventhal, E.A. (1992). Illness cognition: Using common sense to understand treatment adherence and affect cognition interactions. *Cognitive Therapy and Research*, 16, 143–163.
- Mollison, L., O'Daniel, J.M., Henderson, G.E., Berg, J.S. & Skinner, D. (2020). Parents' perceptions of personal utility of exome sequencing results. *Genetics in Medicine*, 22(4), 752–757.
- Nachshen, J.S. (2005). Empowerment and families: Building bridges between parents and professionals, theory and research. *Journal on Developmental Disabilities*, 11(1), 67–76.
- Norsk psykologforening. (u.å.). *Valgfritt program i klinisk helsepsykologi*. Hentet 9. august 2024 fra <https://>
- Osborne, R.H., Batterham, R.W., Elsworth, G.R., Hawkins, M. & Buchbinder, R. (2013). The grounded psychometric development and initial validation of the Health Literacy Questionnaire (HLQ). *BMC Public Health*, 13, 1–17.

- Regjeringen. (2021). *Nasjonal strategi for sjeldne diagnoser* (nasjonal strategi). Helse- og omsorgsdepartementet.
- Riggan, K.A., Gross, B., Close, S., Steinberg, A. & Allyse, M.A. (2023). «Knowledge is Power»: parent views on the benefits of early diagnosis and awareness of sex chromosome multिसomy among pediatric professionals. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 44(2), 119–125.
- Ruyter, K. W, Solbakk, J .H. & Waal, H. (2008). *Rusmiddelbrukeren og forskeren. Etske prinsipper, erfaringer og ettertanker* (SERAF- og SME-rapport fra seminar om «Sårbare grupper – forskningsetiske retningslinjer og prinsipper», 2.–3. oktober 2008). Seksjon for medisinsk etikk og Senter for rus- og avhengighetsforskning.
- Singh, N.N., Curtis, W.J., Ellis, C.R., Nicholson, M.W., Villani, T.M. & Wechsler, H.A. (1995). Psychometric analysis of the family empowerment scale. *Journal of Emotional and Behavioral Disorders*, 3(2), 85–91.
- Starke, M. & Möller, A. (2002). Parents' needs for knowledge concerning the medical diagnosis of their children. *Journal of Child Health Care*, 6(4), 245–257.
- Sørensen, K., Van den Broucke, S., Fullam, J., Doyle, G., Pelikan, J., Slonska, Z., Brans, H. & (HLS-EU) Consortium Health Literacy Project European. (2012). Health literacy and public health: a systematic review and integration of definitions and models. *BMC Public Health*, 12, 1–13.
- Taylor, S., Conley Wright, A., Pothier, H., Hill, C. & Rosenberg, M. (2019). It's Like I Have an Advantage in All This: Experiences of Advocacy by Parents of Children with Disabilities from Professional Backgrounds. *Journal of Sociology and Social Welfare*, 46(3).
- Tschamper, M.K., Wahl, A.K., Hermansen, Å., Jakobsen, R. & Larsen, M.H. (2022). Parents of children with epilepsy: Characteristics associated with high and low levels of health literacy. *Epilepsy & Behavior*, 130.
- Tøssebro, J., Berg, B., Bruteig, R., Caspersen, J., Hermstad, I.H. & Wendelborg, C. (2023). Bedre tjenester til barn og unge med sammensatte behov? (Delrapport 1: Utgangspunktet da lovendringene trådte i kraft). NTNU Samfunnsforskning AS.
- Vatne, T.M., Dahle, S.S., Haukeland, Y.B. & Fjermestad, K.W. (2023). A qualitative study of men's experience of being a father in families with childhood disability. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, 35(1), 111–131.

- Verlinde, E., De Laender, N., De Maesschalck, S., Deveugele, M. & Willems, S. (2012). The social gradient in doctor-patient communication. *International journal for equity in health*, 11, 1–14.
- von der Lippe, C., Neteland, I. & Feragen, K.B. (2022). Children with a rare congenital genetic disorder: A systematic review of parent experiences. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 17(1), 375.
- Wahl, A.K., Hermansen, Å., Tschamper, M.B., Osborne, R.H., Helseth, S., Jacobsen, R. & Larsen, M.H. (2024). The Parent Health Literacy Questionnaire (HLQ-Parent). Adaptation and validity testing with parents of children with epilepsy. *Scandinavian Journal of Public Health*, 52(1), 39–47.
- World Health Organization. (u.å.). Improving health literacy. Hentet 25. april 2024 fra
- Yang, H.L., Chen, Y.C., Wang, J.K., Gau, B.S. & Moons, P. (2013). An evaluation of disease knowledge in dyads of parents and their adolescent children with congenital heart disease. *Journal of Cardiovascular Nursing*, 28(6), 541–549.