

# Fatigue Severity Scale (FSS) anvendt i ergoterapeutisk praksis ved Marfans syndrom

Av Trine Bathen

## Sammendrag



*Trine Bathen er ergoterapispesialist i somatisk helse. Hun arbeider ved TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser ved Sunnaas Sykehus HF. E-post: trine.bathen@sunnaas.no*

**Fatigue - tretthet** er vanlig ved mange ulike diagnoser og tilstander, og forekommer også i normalbefolkningen. For å måle fatigue finnes et uttall av redskaper. Hensikten med artikkelen er å beskrive hvordan kartleggingsinstrumentet Fatigue Severity Scale (FSS) egner seg i ergoterapeutisk praksis. Dette belyses med data fra et mastergradsprosjekt om Fatigue ved Marfans syndrom (MFS), en sjelden bindevevstilstand. FSS ble brukt til å kartlegge forekomst av fatigue og hvordan det gir konsekvenser i hverdagen for voksne med MFS. Jeg analyserte også hvilke faktorer som kunne ha sammenheng med fatigue i denne gruppen. Konklusjonen er at FSS egner seg til å beskrive fatigue i en pasientgruppe. FSS har flere spørsmål med et aktivitetsperspektiv, og analyse av disse ga mulighet til å beskrive hvordan fatigue kan påvirke dagliglivet for denne pasientgruppen. FSS er brukt i normalbefolkningen og mange andre pasientgrupper; det ga mulighet til å sammenligne om fatigue hos voksne med MFS arter seg annerledes enn for andre. Analyse av hvilke faktorer som har sammenheng med fatigue i en pasientgruppe kan gi viktig informasjon i forhold til å planlegge intervensjon. Dette prosjektet ga ikke kunnskap om hvordan FSS egner seg til å måle endring, for eksempel effekt av ergoterapitiltak. Det finnes lite forskning om sensitivitet for endring for FSS. Det jeg har funnet, tyder foreløpig på at FSS er lite sensitivt for endring og bør brukes med forsiktighet til det formålet.

**Nøkkelord:** Ergoterapi, Fatigue, Fatigue Severity Scale, Marfans Syndrom

Det er ingen interessekonflikter knyttet til denne artikkelen.

## Introduksjon

Ergoterapeuter møter mange pasienter som opplever fatigue. For å måle fatigue finnes mange redskaper; noen er laget for å studere forekomst av fatigue, andre for å måle effekt av tiltak. Kunnskap om bruksområder og psykometriske egenskaper er viktig for å kunne velge et egnet kartleggingsinstrument for sitt bruk. Denne artikkelen viser hvordan Fatigue Severity Scale (FSS) kan brukes for å undersøke fatigue i en pasientgruppe med den sjeldne bindevevstilstanden Marfans syndrom (MFS).

### HVA ER FATIGUE?

Det finnes ingen enighet om hvordan man skal definere fatigue. Denne definisjonen refereres i flere fatiguestudier:

*«an extreme and persistent tiredness, weakness or exhaustion, mental, physical or both»* (Dittner, Wessely, & Brown, 2004).

Norske oversettelser av fatigue er blant annet tretthet, utmattelse og slitenhet. Lerdal m fl. diskuterer i en artikkel om oversettelse av FSS utfordringer med å oversette begrepet fatigue til norsk (Lerdal et al., 2005). Hovedproblemet var at det mangler ett enhetlig begrep for fatigue på norsk. De endte opp med å oversette fatigue med to begreper: sliten og uopplagt. Jeg har i artikkelen valgt å bruke den engelske betegnelsen fatigue.

Fatigue er vanlig i normalbefolkningen, med forekomst av alvorlig fatigue hos cirka 20 prosent i henholdsvis Nederland og Norge (Bültmann et al., 2002; Lerdal et al., 2005). Fatigue beskrives som et vanlig symptom hos mennesker med mange ulike diagnoser, som myalgisk encephalopati (ME), multipel sklerose (MS),

reumatoid artritt (RA) og depresjon (Dittner et al., 2004). Fatigue har stor innflytelse på pasienters evne til egenomsorgsaktiviteter (Kroenke et al., 1988) og forstyrrer familie og arbeidsforpliktelser (Chen, 1986).

### MARFANS SYNDROM

Ved TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser møter vi personer med MFS som beskriver fatigue og ber om råd for å mestre hverdagen. MFS er en sjelden, arvelig tilstand som skyldes genetiske forandringer i bindevevsprotein fibrillin 1. Bindevev finnes i hele kroppen, det fungerer som «stillas» og forsterkning lik armeringsjern i betong i sener, muskler og knokler. Det finnes også som forsterkning i blodårer, lik nettingen i en hageslange. Ved MFS er derfor ofte mange ulike organsystemer i kroppen påvirket, blant annet hjerte- karsystemet, skjelettsystemet og øyet (Loeys et al., 2010). Den alvorligste konsekvensen er påvirkning av hovedpulsåren (aorta) med fare for utvidelse (aortadilatasjon) eller sprekke av det innerste laget av hovedpulsåren (aortadisseksjon), og kan føre til plutselig død (Loeys et al., 2010). Øyet er hos noen påvirket ved at trådene som holder øyelinsen på plass kan være dårlige, med økt risiko for synshemming og blindhet. Mange har påvirkning av skjelettsystemet med lange armer, ben, hender og føtter, noen har deformiteter i rygg og brystkasse, noen har overbevegelige ledd (Loeys et al., 2010). Noen får et noe annerledes utseende (Van Tangerloo & De Paepe, 1998). Det beskrives at mange har smerter i muskel – skjelettsystemet (Peters et al., 2001). Medisinsk utvikling de senere tiår har bidratt til at personer

med MFS nå har tilnærmet normal livslengde (Loeys et al., 2010). Tilstanden er såkalt autosomt dominant arvelig, det vil si at det er 50 prosent sjanse for at hvert barn kan arve tilstanden. For cirka 30 prosent oppstår tilstanden som nye mutasjoner. Forekomst av MFS er hittil lite studert, og hvor mange i Norge som har MFS er ukjent, men det kan dreie seg om mellom 200 og 2000 personer (Rand-Hendriksen, 2010).

Som vist er MFS en sammensatt sykdom med mange mulige fysiske, psykiske og sosiale utfordringer. Det er sannsynlig at mange ulike faktorer kan bidra til opplevelsen av fatigue ved denne tilstanden.

### MARFANS SYNDROM OG FATIGUE – HVA ER KJENT?

Forekomst av fatigue, hvordan det arter seg, og hvilke konsekvenser det har i hverdagen for personer med MFS, er i liten grad studert. I et kvalitativt prosjekt om sjeldne funksjonshemminger og aldring er blant annet flere voksne med MFS intervjuet (Thorsen & Grut, 2011). Noen av deltakernes utsagn sammenfattes slik:

*«Den store trettheten skaper problemer i hverdagslivet, den gir uoppmerksomhet og manglende energi til å delta»* (Thorsen & Grut 2011 s. 124).

Fire mindre studier har kartlagt forekomst av fatigue ved MFS (Percheron et al., 2007; Peters et al., 2001; Rand-Hendriksen et al., 2007; van Dijk et al., 2008). Peters med flere fant at 89 prosent av respondentene opplevde fatigue; fatigue var relatert til bruk av blodtrykkssenkende medikamenter, men ikke til depresjon (Peters et al., 2001). De tre andre studiene har brukt ulike standardiserte fatigueinstrumenter og finner

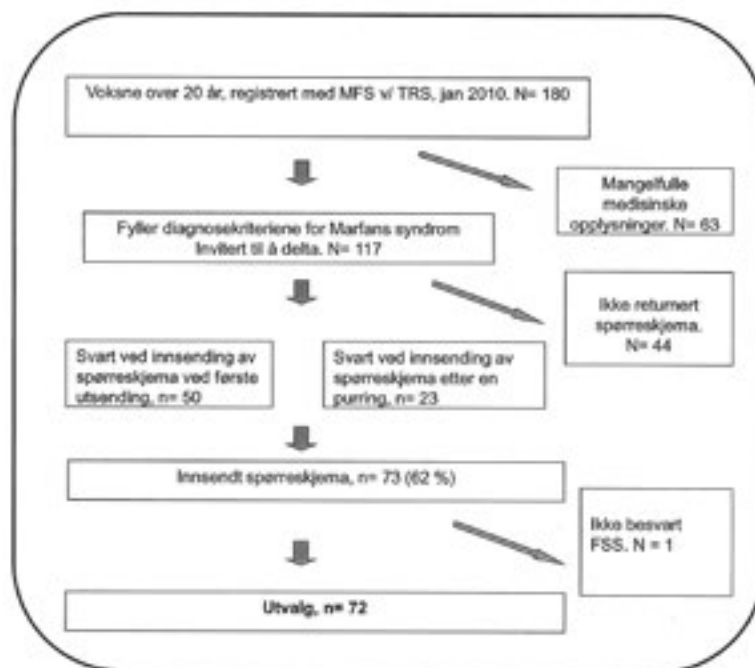
høyere fatigueskår hos deltakerne sammenlignet med friske kontrollgrupper (Percheron et al., 2007; Rand-Hendriksen et al., 2007; van Dijk et al., 2008). Faktorer som hadde sammenheng med fatigue var: psykologisk belastning (hos kvinnene) (Rand-Hendriksen et al., 2007), endret muskelsammensetning (Percheron et al., 2007) og ortostatisk intoleranse (van Dijk et al., 2008). Alle diskuterer imidlertid at studiene har små utvalg, og at resultatene må tolkes med forsiktighet.

På bakgrunn av dette så vi behov for mer forskning om fatigue hos voksne med MFS. Målsettingen for studien var å undersøke hvordan fatigue påvirker aktivitet og deltakelse, videre å undersøke om fatiguenivå og forekomst av alvorlig fatigue var annerledes hos voksne med MFS sammenlignet med normalbefolkningen. I tillegg ville vi undersøke hvilke faktorer som kan ha sammenheng med fatigue i denne gruppen.

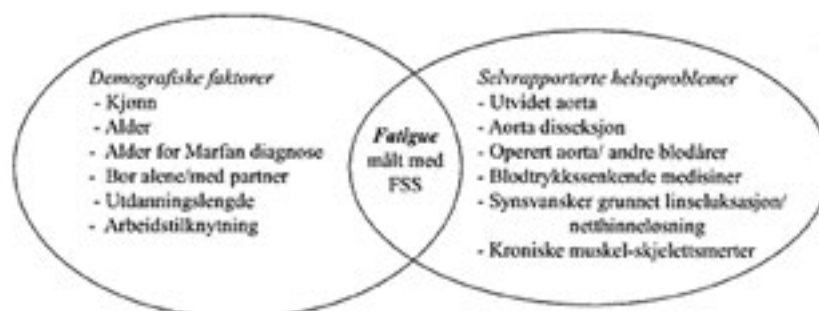
Målsetting for denne artikkelen har vært å beskrive hvordan kartleggingsinstrumentet FSS (Krupp et al., 1989) eger seg i ergoterapeutisk praksis for å beskrive forekomst av fatigue, og hvordan det gir konsekvenser i hverdagen for voksne med MFS. Vurderingen av bruksområder og psykometriske egenskaper som ligger til grunn for valg av fatigueinstrument beskrives også.

## Metode

Studien er en tverrsnittsstudie og del av en større studie: «Å leve med Marfans syndrom, utfordringer i utdanning, arbeid og hverdagsliv», gjennomført ved TRS kompetansesenter for sjeldne diagnoser. Studien er anbefalt av Kompetansesenter for personvern og sikkerhet ved Ullevål Universi-



Figur 1. Inklusjon av deltakere til studien.



Figur 2. Modell for valg av forklaringsvariabler til analyser av sammenhenger med fatigue og andre faktorer.

tetssykehus HF og Regional Etisk Komité for medisinsk og helsefaglig forskning Helse Sør-Øst.

## DELTAKERE

Alle brukere ved TRS kompetansesenter (20 år og eldre) som ble vurdert å ha bekreftet MFS, ble forespurt om å delta i studien (n = 117). Informasjonsskriv, samtykkeskjema og spørreskjema ble sendt med post til aktuelle deltakere våren 2011. Figur 1 viser inklusjon av deltakere til studien.

## KARTLEGGINGSINSTRUMENTER

Studien inkluderte spørsmål om: demografiske forhold, Marfanre-

laterte helseproblemer, kroniske muskel- skjelettsmerter og fatigue. Da det ikke finnes standardiserte skjema som fanger opp Marfanrelaterte helseproblemer, ble disse laget av prosjektgruppen. Utprøving og vurdering av dette er nærmere beskrevet i en masteroppgave (Bathen, 2013). Forekomst av kroniske smerter ble undersøkt med «Nordic Pain Questionnaire» (Kuorinka et al., 1987). I delstudien om fatigue brukte vi spørsmålet: «har du i løpet av det siste året vært plaget av kroniske smerter og/eller stivhet i muskler og ledd som har vart i minst tre måneder sammenhengende?»

Fatigue ble undersøkt med

FSS (Krupp et al., 1989). Dette instrumentet ble valgt fordi det måler konsekvenser av fatigue på funksjon i dagliglivet (Dittner et al., 2004). FSS har også vært brukt i to studier av voksne med MFS (Percheron et al., 2007; Rand-Hendriksen et al., 2007).

For å besvare problemstillingen om hvilke faktorer som kan ha sammenheng med fatigue hos voksne med MFS, har vi undersøkt to hovedområder: demografiske forhold og helserelaterede forhold (figur 2).

### FATIGUE SEVERITY SCALE

FSS ble laget til bruk i forskning og pasientbehandling hos pasienter med ulike medisinske og nevrologiske tilstander (Krupp et al., 1989). FSS består av ni påstander, se [www.psykologforeningen.no/content/download/30837/309523/file/FSS.pdf](http://www.psykologforeningen.no/content/download/30837/309523/file/FSS.pdf). Personen krysser av for hver av påstandene på en syvdelt skala, hvor 1 = helt uenig og 7 = helt enig. Deretter kalkuleres en gjennomsnittsskår (FSS-skår) (min. 1, maks. 7). FSS er oversatt til norsk (figur 3) og testet for psykometriske egenskaper i en norsk normalbefolkningsstudie (Lerdal et al., 2005).

**Psykometriske egenskaper:**  
**Reliabilitet, validitet og sensitivitet for endring:** Det er viktig at kartleggingsinstrumenter ikke måler feil (pålitelighet - reliabilitet), at de måler det vi vil de skal måle (gyldighet - validitet) og at de kan fange opp endringer (sensitivitet for endring - responsiveness). Dette er komplekse begreper, og artikkelens omfang gjør at jeg her kun kort behandler test-retest-reliabilitet, diskriminerende validitet og sensitivitet for endring.

**Test-retest-reliabilitet** omhandler i hvilken grad et instrument er stabilt ved gjentatte

Fatigue Severity Scale		
Krupp et al. 1989, (if norsk ved Lerdal, 2005)		
Velg et tall fra 1 til 7 som angir i hvor stor grad du er enig med hvert enkelt utsagn, der 1 angir at du er helt uenig og 7 at du er helt enig. (sett ring rundt ett tall for hvert utsagn)		
Items / enkeltspørsmål		Helt uenig Helt enig
1	Min motivasjon er lavere når jeg er sliten og uopplagt.	1 2 3 4 5 6 7
2	Fysisk aktivitet gjør meg sliten og uopplagt.	1 2 3 4 5 6 7
3	Jeg blir fort sliten og uopplagt.	1 2 3 4 5 6 7
4	Det at jeg er sliten og uopplagt, virker inn på hvordan jeg fungerer fysisk.	1 2 3 4 5 6 7
5	Det at jeg er sliten og uopplagt, skaper ofte vanskeligheter for meg.	1 2 3 4 5 6 7
6	Det at jeg er sliten og uopplagt, hindrer meg i å opprettholde min fysiske funksjonsdyktighet over tid.	1 2 3 4 5 6 7
7	Det at jeg er sliten og uopplagt, virker inn på evnen til å utføre visse oppgaver og plikter.	1 2 3 4 5 6 7
8	Det at jeg er sliten og uopplagt, er ett av de tre symptomene som hemmer meg mest.	1 2 3 4 5 6 7
9	Det at jeg er sliten og uopplagt, virker inn på mitt arbeid, mitt familieliv eller min omgang med venner og kjente.	1 2 3 4 5 6 7

Figur 3. Fatigue Severity Scale, norsk oversettelse (Lerdal m fl. 2005).

målinger på samme person (Terwee et al., 2007). Krupp m fl konkluderte med god test-retest-reliabilitet for FSS på bakgrunn av en studie med elleve personer (Krupp et al 1989). Dette vurderes i dag ikke som tilfredsstillende (Terwee et al 2007). Test-retest-reliabilitet for FSS er funnet tilfredsstillende for pasienter med depresjon (Ferentinos et al., 2011), men er ikke tilstrekkelig undersøkt for pasienter med MS, Parkinson og hjerneslag (Elbers et al., 2012).

**Diskriminerende validitet** handler om hvorvidt instrumentet kan skille mellom ulike grupper, for eksempel om en pasientgruppe har mer fatigue enn en annen. For å fastslå om en person har, i dette tilfellet, mye eller lite fatigue, er det vanlig å bruke en grenseverdi - en «cut-off-verdi». Studier som har benyttet FSS, beskriver to ulike cut-off-verdier for om personen vurderes å ha eller ikke ha «alvorlig fatigue» («severe fatigue»).

Opprinnelig brukte Krupp m fl FSS skår  $\geq 4$  som cut-off for alvorlig fatigue, med begrunnelsen at kun fem prosent av friske

kontroller (n = 20) hadde FSS skår  $\geq 4$  (Krupp et al 1989). Lerdal m. fl. argumenter for å bruke cut-off-skår  $\geq 5$  i en studie av fatigue i den norske befolkningen. Med cut-off på  $\geq 5$  hadde 22 prosent av deltakerne alvorlig fatigue; med cut-off på  $\geq 4$  hadde 47 prosent av den norske normalbefolkningen hatt alvorlig fatigue (Lerdal et al., 2005). Dette virker urimelig høyt.

I denne studien har vi benyttet følgende cut-off skår: Alvorlig fatigue  $\geq 5$ , borderline fatigue  $> 4 < 5$  og ingen fatigue  $\leq 4$ .

Reliabilitet og validitet er ikke undersøkt i forhold til personer med MFS, men er undersøkt for en sammenlignbar pasientgruppe; pasienter med SLE (Mattsson et al. 2008). Dette ble vurdert som tilfredsstillende.

**Sensitivitet for endring** (responsiveness) er evnen et instrument har til å fange opp klinisk viktige endringer over tid, selv om disse er små. Krupp m fl. konkluderte med at sensitivitet for endring var god, men hadde kun et lite utvalg pasienter (n = 8) (Krupp et al 1989). Metodene brukt i artikkelen var heller ikke i

Forfattere og årstall	Pasientgruppe	MDC*
Rietberg, Van Wegen & Kvakkel. 2010	MS	21 prosent
Horemans et al. 2004	Postpolio	27 prosent
Impellizzeri et al. 2013	Overvekt	37 prosent
Learmonth et al. 2013	MS	38 prosent

Tabell 1: Studier som har vurdert sensitivitet for endring med MDC for Fatigue Severity Scale

\*Verdiene angir hvor stor endring i FSS må være ved gjentatte målinger for at man skal tro på at det er en reell endring større enn målefeilen i instrumentet

<b>Demografiske faktorer</b>	
Gjennomsnittsalder (år),	44 (min 20 - max 71)
Median alder for Marfandiagnose (år), N = 67 <sup>†</sup>	24 (min 0 <sup>††</sup> - max 56)
Kvinner	57 prosent
Bor med voksen partner	58 prosent
Utdanningslengde ≤ 13 år	54 prosent
Arbeidsstatus (i arbeid/ under utdanning) <sup>†††</sup>	57 prosent
<b>Selvrapporterte helseproblemer:</b>	
Utvidelse av aorta	90 prosent
Aortadisseksjon	35 prosent
Operert aorta/ andre blodårer	58 prosent
Bruker blodtrykkssenkende medikamenter	68 prosent
Synsvansker grunnet linseluksasjon/netthinneløsning	35 prosent
Kronisk smerte/stivhet i muskler og ledd	64 prosent

Tabell 2. Beskrivelse av utvalget, N = 72.

<sup>†</sup> Fem personer vet ikke alder for når de fikk Marfandiagnose. <sup>††</sup> Diagnosen ble stilt ved fødsel på grunn av kliniske tegn og forelder med diagnosen. <sup>†††</sup> I arbeid/under utdanning versus på trygdeytelser.

samsvar med det som anbefales i dag: å undersøke MDC (minimal detectable change) og MCID (minimal clinical important difference) (Terwee et al., 2007).

MDC (minste oppdagbare endring) beregnes ved statistiske metoder og handler om hvor stor endringen må være for at vi skal tro på at det er en reell endring utover målefeilen i instrumentet. Fire studier har undersøkt MDC i ulike pasientgrupper (se tabell 1), de konkluderer med at FSS er lite sensitivt for endring.

MCID (minste klinisk viktige endring) defineres som den minste endringen i skår i det området man undersøker, som pasienten opplever som betydningsfull og som vil føre til at man i fravær av bivirkninger eller økte kostnader

vil endre pasientbehandlingen (Terwee et al., 2007). Dette undersøkes blant annet ved: «patient opinions, expert consensus, standard error of measurement» (Carter, 2011). To studier har undersøkt MIC/ MCID, de finner at en endring i FSS skår kan vurderes som klinisk betydningsfull hvis det er en endring på minst 0,4 poeng (pasienter med SLE) (Goligher et al., 2008) og minst 0,7 poeng (pasienter med RA) (Pouchot et al., 2008).

Sensitivitet for endring var det ikke relevant å vurdere i denne studien, da vi ikke skulle se på forandringer over tid, men vi har vurdert om forskjellen i forekomst av alvorlig fatigue i utvalget sammenlignet med normalbefolkningen var klinisk betydningsfull.

*Nyutvikling og kortversjoner av FSS:* Raschanalyse (moderne statistisk analyse som bla brukes i forhold til AMPS) har vært brukt for å videreutvikle FSS. Flere studier finner at spørsmål 1: «min motivasjon er lavere når jeg er sliten og uopplagt» og spørsmål 2: «fysisk aktivitet gjør meg sliten og uopplagt» viser dårlig sammenheng med resten av spørsmålene. Ved å fjerne disse og bruke en FSS – 7 versjon, finner de indikasjon på bedret sensitivitet for endring (Lerdal et al. 2010; Lerdal & Kottorp, 2011).

## STATISTISKE ANALYSER

Anonymiserte data ble analysert med SPSS versjon 19, et signifikansnivå på  $p \leq 0,05$  ble brukt for alle analyser. Deskriptive data er oppgitt som frekvenser, prosenter, standard-deviasjoner (SD) og gjennomsnittlig forskjell (mean difference) med 95 prosent konfidensintervall. Students T-tester ble brukt for å analysere forskjeller mellom utvalgets gjennomsnittlige FSS-skår og rapportert gjennomsnitt for normalbefolkningen. Sammenhenger mellom utfallsvariabelen (FSS-skår) og forklaringsvariablene ble først undersøkt med Pearsons korrelasjons-koeffisient og Independent samples T-test. Deretter ble variabler som viste signifikant sammenheng analysert videre med multipl regressjonsanalyse.

## Resultater

72 personer deltok. 41 (57 prosent) var kvinner, og gjennomsnittsalder var 44 år. Tabell 2 viser en beskrivelse av utvalget

Enkeltspørsmålene i FSS ble analysert for å se på hvordan fatigue påvirker aktivitet og deltakelse (tabell 3). 60 prosent av respondene har en gjennomsnittskår  $\geq 5$  på

Item/enkeltspørsmål	Gjennomsnitt FSS-skår	Distribusjon av skår 1 - 7 i prosent		
		1-3	4	5-7
Min motivasjon er lavere når jeg er sliten og uopplagt	5.8	8	6	86
Det at jeg er sliten og uopplagt virker inn på hvordan jeg fungerer fysisk	5.4	12	10	78
Det at jeg er sliten og uopplagt virker inn på mitt arbeid, mitt familieliv eller min omgang med venner og kjente	4.8	28	12	60
Det at jeg er sliten og uopplagt er et av de tre symptomene som hemmer meg mest	4.8	35	8	57
Det at jeg er sliten og uopplagt virker inn på evnen til å utføre oppgaver og plikter	4.7	30	10	60
Jeg blir fort sliten og uopplagt	4.7	25	15	60
Det at jeg er sliten og uopplagt hindrer meg i å opprettholde min fysiske funksjonsdyktighet over tid	4.4	38	11	51
Fysisk aktivitet gjør meg sliten og uopplagt	3.9	42	19	39
Det at jeg er sliten og uopplagt skaper ofte vanskeligheter for meg	3.9	46	18	36

Tabell 3. Gjennomsnitt og distribusjon av skår for enkeltspørsmål i Fatigue Severity Scale.

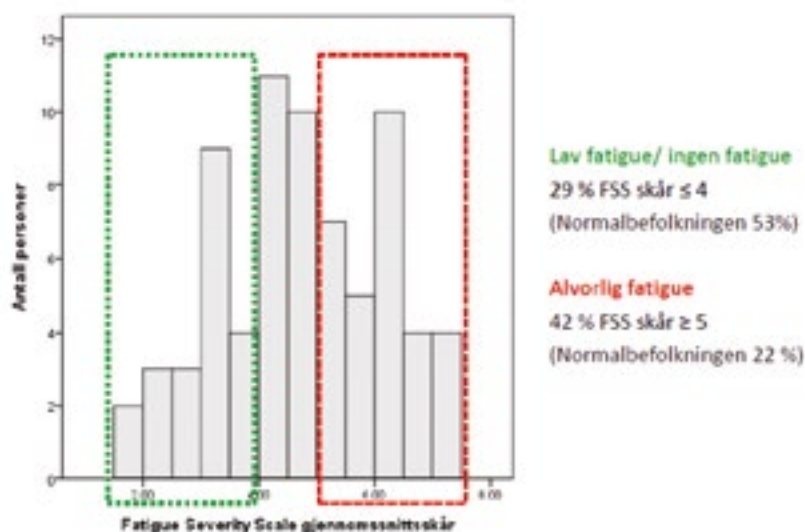
Item-skår fra 1 (helt uenig) til 7 (helt enig). Items/enkeltspørsmål er rangert synkende med items med høyest gjennomsnittsskår øverst.

spørsmålet «Det at jeg er sliten og uopplagt virker inn på mitt arbeid, mitt familieliv eller min omgang med venner og kjente».

Gjennomsnittlig FSS-skår i utvalget var 4,7; 0,7 poeng høyere enn gjennomsnittet for den norske normalbefolkningen (Lerdal et al., 2005). Forskjellen er statistisk signifikant og kan også vurderes som klinisk betydningsfull i forhold til anslåtte verdier for MCID i andre pasientgrupper (Goligher et al., 2008; Pouchot et al., 2008).

Figur 4 viser fordeling av lav versus alvorlig fatigued i utvalget. 42 prosent av respondentene hadde alvorlig fatigued (FSS-skår  $\geq 5$ ).

Kun kronisk smerte og arbeidstilknytning viste signifikant sammenheng med fatigued i multippel lineær regresjonsanalyse. Personer med kronisk smerte hadde høyere fatigued enn personer uten kronisk smerte. Personer på trygdeytelser hadde høyere fatiguedskår enn personer som var i arbeid eller under utdanning. Den multivariable modellen for-



Figur 4. Andel med lav/ingen vs. alvorlig fatigued hos voksne med Marfans syndrom.

klarte 24 prosent av variasjonen i fatiguedskår.

### Diskusjon

#### FATIGUED HOS VOKSNE MED MARFANS SYNDROM

Studien bekrefter at mange voksne med MFS opplever fatigued, og at det begrenser aktivitet og deltakelse. Det er viktig at helsevesenet og også ergoterapeuter bidrar til at denne gruppen kan

finne måter å mestre plagene og hverdagen best mulig på. Imidlertid viser funnene også at det er stor variasjon i gruppen voksne med MFS; noen opplever fatigued, andre gjør det ikke.

Kronisk smerte og arbeidstilknytning viste signifikant sammenheng med fatigued og forklarte 24 prosent av variasjonen i fatiguedskår. Dette understreker at det må være andre faktorer som

bidrar til fatigue hos voksne med MFS som vi ikke undersøkte. Resultatene er grundig diskutert i en egen artikkel (Bathen et al 2014).

En styrke ved prosjektet var at vi kun inkluderte personer med bekreftet diagnose, svarprosenten var også relativt høy. Resultatene kan ikke uten videre generaliseres til å gjelde alle med MFS. Det er ukjent hvor mange som har MFS i Norge, og vi kan ikke vite sikkert at vårt utvalg var representativt. Det er behov for mer forskning om fatigue hos voksne med MFS.

### **FSS – EGNET FOR ERGOTERAPEUTISK PRAKSIS?**

I dette prosjektet ble FSS brukt for å studere fatigue hos en gruppe personer. Jeg mener FSS var egnet til dette formålet, og at jeg fikk svar på problemstillingene mine. Det at instrumentet spør om aktivitetskonsekvenser av fatigue, appellerer til meg som ergoterapeut. Analyse av enkeltspørsmålene i FSS illustrerer dette. Seksti prosent av deltakerne svarte  $\geq 5$  på spørsmålet: «Det at jeg er sliten og uopplagt virker inn på mitt arbeid, mitt familieliv og min omgang med venner og kjente». Dette viser at fatigue har konsekvenser for aktivitet og deltakelse for mange med MFS. Samtidig hadde spørsmålet: «Det at jeg er sliten og uopplagt skaper ofte vanskeligheter for meg» lavest gjennomsnittsskår av alle enkeltspørsmålene. Dette kan kanskje tyde på at mange finner strategier for å mestre fatigue, eller at andre problemstillinger blir viktigere.

Fra et ergoterapiperspektiv er det viktig å studere hvilke faktorer som kan ha sammenheng med fatigue i ulike pasientgrupper. Det kan hjelpe oss å forstå fenomenet fatigue generelt og for den spesifikke pasientgruppen spesielt. Hos denne gruppen voksne

med MFS var kronisk smerte og arbeidstilknytning de faktorene som hadde signifikant sammenheng med fatigue. Sammenheng mellom fatigue og andre faktorer er studert i flere andre pasientgrupper. Nikolaus m. fl finner at smerte, fysisk funksjon og depresjon er de faktorene som har sammenheng med fatigue hos pasienter med RA (Nikolaus et al.2013). Brophy m fl. finner signifikant sammenheng med smerte hos pasienter med Bechterews sykdom (ankylosing spondylitis), og foreslår derfor at behandling av fatigue i denne pasientgruppen bør fokusere på intervensjon i forhold til smerte (Brophy et al., 2013). Forskning om hvilke faktorer som kan påvirke og ha sammenheng med fatigue i en pasientgruppe, er viktig for å forstå fatigue i pasientgruppen bedre og derved kunne utvikle effektive behandlingstiltak. Dette er både et interessant og viktig felt for ergoterapeuter å involvere seg i. FSS kan være et egnet instrument til dette formålet.

Et instruments egnethet handler også om det er et gyldig og pålitelig instrument. Kan vi stole på det, og måler det det vi vil måle? Artikkelen beskriver at test-retest-reliabilitet er godt dokumentert for noen pasientgrupper, men fortsatt usikkert for andre. Dette er det viktig å vurdere i forhold til den pasientgruppen en selv skal undersøke. Diskriminerende validitet og hvilke cut-off-verdier som skal brukes for alvorlig fatigue er det også viktig å ta stilling til hvis målsetting er å beskrive forekomst av alvorlig fatigue, og om denne er annerledes enn for andre grupper. Litteraturen på cut-off-verdier for FSS er mangelfull og motstridende. Mange artikler diskuterer og

begrunner ikke de cut-off-verdiene de bruker. Ifølge Lerdal m. fl. er cut-off for alvorlig fatigue  $\geq 5$  den som brukes mest i nyere studier av pasienter med MS, men det mangler studier som har validert cut-off-verdier klinisk (Lerdal et al., 2010).

Sensitivitet for endring ser ut til å være lite undersøkt; de studiene jeg har beskrevet, sår tvil om hvorvidt FSS er egnet til å måle endring. Hvis formålet er å måle effekt av for eksempel ergoterapitiltak, er det viktig å finne et instrument som faktisk kan fange opp endringer. En studie om effekt av energiøkonomisering for pasienter med MS finner ingen signifikant endring i FSS-skår etter behandling (Sauter et al. 2008), men forfatterne diskuterer ikke i hvilken grad FSS er sensitivt for å fange opp endringer.

Ergoterapeuter bør bidra til studier som undersøker sensitivitet for endring for FSS-9 og FSS-7 i ulike pasientgrupper. Mitt fokus i dette prosjektet har vært å finne et instrument som kunne måle fatigue på gruppenivå, og jeg har derfor ikke oversikt over om det finnes andre fatigueinstrumenter som er bedre egnet til å måle endring. Det er behov for artikler som belyser fatigueinstrumenter som egner seg til å måle effekt av ergoterapeutisk intervensjon ved fatigue.

### **Konklusjon**

Studien viser at mange voksne med MFS opplever fatigue, og at dette begrenser aktivitet og deltakelse. FSS egner seg til å beskrive forekomst av fatigue og hvordan fatigue kan påvirke dagliglivet for en pasientgruppe. Sammenligning av FSS-skår mot rapporterte verdier i andre grupper kan gi kunnskap om hvorvidt

fatigue hos den pasientgruppen en undersøker er annerledes enn for andre grupper. Analyse av hvilke faktorer som har sammenheng med fatigue i pasientgruppen kan gi viktig informasjon i forhold til å planlegge effektive tiltak.

Dette prosjektet ga ikke kunnskap om hvordan FSS egner seg til å måle endring, for eksempel effekt av ergoterapitiltak. Det finnes lite forskning om sensitivitet for endring for FSS. Det jeg har funnet, tyder foreløpig på at FSS er lite sensitivt for endring og bør brukes med forsiktighet til det formålet.

## Litteraturliste

- Bathen, T. (2013). Marfans syndrom og fatigue : *En tverrsnittstudie i en gruppe voksne personer med verifisert Marfans syndrom*. (Master i Helsefagvitenskap Masteroppgave), Universitetet i Oslo. <http://urn.nb.no/URN:NBN:no-37820>
- Bathen T et al (2014). Fatigue in adults with Marfan syndrome, occurrence and associations to pain and other factors. *Am J Med Genet Part A* 164A:1931–1939. <http://onlinelibrary.wiley.com/doi/10.1002/ajmg.a.36574/abstract>.
- Brophy, S. et al. (2013). Fatigue in ankylosing spondylitis: treatment should focus on pain management. *Semin Arthritis Rheum*, 42(4), 361-367.
- Bültmann, U. et al. (2002). Fatigue and psychological distress in the working population: psychometrics, prevalence, and correlates. *J Psychosom Res*, 52(6), 445-452.
- Carter, R., Lubinsky, J. & Domholdt, E. (2011). *Rehabilitation research: Principles and applications* (4th ed.). St.Louis, Missouri: Elsevier Saunders.
- Chen, M. K. (1986). The epidemiology of self-perceived fatigue among adults. *Prev Med*, 15(1), 74-81.
- Dittner, A. J., Wessely, S. C., & Brown, R. G. (2004). The assessment of fatigue: a practical guide for clinicians and researchers. *J Psychosom Res*, 56(2), 157-170.
- Elbers, R. G. et al. (2012). Self-report fatigue questionnaires in multiple sclerosis, Parkinson's disease and stroke: a systematic review of measurement properties. *Qual Life Res*, 21(6), 925-944.
- Ferentinos, P. et al. (2011). Psychometric evaluation of the Fatigue Severity Scale in patients with major depression. *Qual Life Res*, 20(3), 457-465.
- Goligher, E. C. et al. (2008). Minimal clinically important difference for 7 measures of fatigue in patients with systemic lupus erythematosus. *J Rheumatol*, 35(4), 635-642.
- Horemans, H. L. et al. (2004). A comparison of 4 questionnaires to measure fatigue in postpoliomyelitis syndrome. *Archives of Physical Medicine and Rehabilitation*, 85(3), 392-398.
- Impellizzeri, F. M. et al. (2013). Psychometric properties of the Fatigue Severity Scale in obese patients. *Health Qual Life Outcomes*, 11/1:32.
- Kroenke, K. et al. (1988). Chronic fatigue in primary care. Prevalence, patient characteristics, and outcome. *JAMA*, 260(7), 929-934.
- Krupp, L. B. et al. (1989). The fatigue severity scale. Application to patients with multiple sclerosis and systemic lupus erythematosus. *Arch Neurol*, 46(10), 1121-1123.
- Kuorinka, I. et al (1987). Standardised Nordic Questionnaires for the analysis of musculoskeletal symptoms. *Applied Ergonomics*, 18, 233-237.
- Learmonth, Y. et al. (2013). Psychometric properties of the Fatigue Severity Scale and the Modified Fatigue Impact Scale. *J Neurol Sci*.
- Lerdal, A. et al. (2010). Psychometric properties of the Fatigue Severity Scale: Rasch analyses of responses in a Norwegian and a Swedish MS cohort. *Mult Scler*, 16(6), 733-741.
- Lerdal, A., & Kottorp, A. (2011). Psychometric properties of the Fatigue Severity Scale-Rasch analyses of individual responses in a Norwegian stroke cohort. *Int J Nurs Stud*, 48(10), 1258-1265.
- Lerdal, A. et al. (2005). Fatigue in the general population; A translation and test of the psychometric properties of the Norwegian version of the fatigue severity scale. *Scandinavian Journal of Public Health*, 33(2), 123-130.
- Loeys, B. L. et al. (2010). The revised Ghent Nosology for the Marfan Syndrome. *J Med Genet*, 47(7), 476-485.
- Mattsson, M. et al. (2008). Reliability and validity of the Fatigue Severity Scale in Swedish for patients with systemic lupus erythematosus. *Scand J Rheumatol*, 37(4), 269-277.
- Nikolaus, S. te al. (2013). Fatigue and factors related to fatigue in rheumatoid arthritis: a systematic review. *Arthritis Care Res (Hoboken)*, 65(7), 1128-1146.
- Percheron, G. et al. (2007). Muscle strength and body composition in adult women with Marfan syndrome. *Rheumatology (Oxford)*, 46(6), 957-962.
- Peters, K. F. et al. (2001). Living with Marfan syndrome I. Perceptions of the condition. *Clin Genet*, 60(4), 273-282.
- Pouchot, J. et al. (2008). Determination of the minimal clinically important difference for seven fatigue measures in rheumatoid arthritis. *J Clin Epidemiol*, 61(7), 705-713.
- Rand-Hendriksen, S. (2010). *Marfan syndrome- A Diagnostic Challenge. Aspect of a Norwegian cohort study*. (Dissertation for the Degree of PhD PhD), University of Oslo, Oslo.
- Rand-Hendriksen, S. et al. (2007). Fatigue, cognitive functioning and psychological distress in Marfan syndrome, a pilot study. *Psychology, Health & Medicine*, 12(3), 305-313.
- Rietberg, M., Van Wegen, E., & Kwakkel, G. (2010). Measuring fatigue in patients with multiple sclerosis: reproducibility, responsiveness and concurrent validity of three Dutch self-report questionnaires. *Disability & Rehabilitation*, 32(22), 1870-1876.
- Sauter, C. et al. (2008). A longitudinal study on effects of a six-week course for energy conservation for multiple sclerosis patients. *Multiple Sclerosis*, 14(4), 500-505.
- Terwee, C. B., et al. (2007). Quality criteria were proposed for measurement properties of health status questionnaires. *J Clin Epidemiol*, 60(1), 34-42.
- Thorsen, K., & Grut, L. (2011). *Sjelden og vanlig. Livsberetninger, livsløp og aldring med sjeldne diagnoser*. Forlaget Aldring og Helse.
- van Dijk, N. et al. (2008). Is fatigue in Marfan syndrome related to orthostatic intolerance? *Clin Auton Res*, 18(4), 187-193.
- Van Tangerloo, A., & De Paepe, A. (1998). Psychosocial adaptation in adolescents and young adults with Marfan syndrome: an exploratory study. *J Med Genet*, 35: 405-409