



LUNDS UNIVERSITET  
Medicinska fakulteten

Föräldrars upplevelser av att ha ett barn med en diagnos inom Nationell  
Högspecialiserad vård för barnkirurgi  
En litteraturstudie

Parents' experience of having a child with a pediatric surgical diagnosis  
within the National Highly Specialized Care system  
A literature study

Författare: Frida Ericsson och Vilde Stankiewicz

Handledare: Eva I Persson

Magisteruppsats  
Hösten 2022

Lunds universitet  
Medicinska fakulteten  
Programnämnden för omvårdnad, radiografi samt reproduktiv, perinatal och sexuell hälsa  
Box 157, 221 00 LUND

## Abstrakt

*Bakgrund:* I Sverige år 2020 föddes det cirka 114 500 barn. Av dessa föds ungefär 2% med en missbildning som behöver behandlas inom medicinsk eller kirurgisk vård. De barnkirurgiska diagnoserna inom Nationell Högspecialiserad vård (NHV) är endast en liten del av alla de medfödda missbildningarna. Forskningslitteraturen som behandlar barn och familjer med NHV-diagnoserna utifrån ett familjeperspektiv är mycket begränsad.

*Syfte:* Att belysa hur föräldrar upplever att ha ett barn med en diagnos inom Nationell Högspecialiserad vård för barnkirurgi.

*Metod:* En systematisk genomgång av studier som bygger på intervjuer med föräldrar till barn med de aktuella diagnoserna genomfördes. Studierna identifierades genom systematisk sökning i flera vetenskapliga litteraturlitatabaser. Enbart 10 studier uppfyllde de ställda kriterierna gällande innehåll och metod. Resultaten i dessa sammanställdes, analyserades och kodades i återkommande teman som sedan grupperades i huvudteman och underteman.

*Resultat:* Analysen resulterade i fyra huvudteman, *Att få ett barn med missbildning*, *Delaktighet*, *Kommunikation* och *Stöd från omgivningen*, samt sex underteman. Dessa redovisas i rapporten.

*Slutsats:* Vård av nyfödda barn med barnkirurgiska diagnoser ställer mycket stora krav på både föräldrar och sjukvårdspersonal. Det är av yttersta betydelse att samspelet mellan dessa fungerar bra. Föräldrarnas situation är mycket komplex och deras upplevelser ofta traumatiska. De analyserade studierna ger många viktiga insikter om olika problem och reaktionsmönster hos berörda föräldrar och personal. Det är av stor vikt att dessa insikter fördjupas och systematiseras i fler studier. De befintliga studierna är alldeles för få.

### Nyckelord

Parents experience, Congenital Malformations, Hirschsprungs disease, Diaphragmatic hernia, Anorectal malformations, Esophageal atresia

Background:

## Abstract

Of the roughly 114500 children born in Sweden in 2020 round 2% had malformation requiring medical or surgical treatment. The malformations requiring pediatric surgery within the National Highly Specialized Medical Care system(NHV) constitute only a small part of all congenital malformations. Research literature that deals with the care of these children in a family perspective (focusing on the situation of the parents) is very limited.

### Purpose:

To investigate the experience of the parents of the children with a pediatric surgical diagnosis included in the NHV national referral system.

### Method:

A review of research literature based on interviews with the parents of children with relevant diagnosis was carried out. The studies were identified through a systematic search in several scientific literature bases. Only 10 studies met the methodological and content criteria. The results of these studies were analyzed and coded in order to identify recurring themes and sub-themes.

### Result:

The analysis resulted in 4 main themes: 1) *to have a child with a malformation*, 2) *involvement*, 3) *communication* and 4) *support from their surroundings*. The themes are presented and discussed in the report.

### Conclusion:

The care of children with malformations requiring surgery puts extremely high demands on both parents and the medical personnel. It is of great importance that communication and cooperation between them functions well. The situation of the parents is very complex and their experiences often traumatic. The studies analyzed here give many important insights regarding diverse problems and the ways in which the parents and the medical personnel react to them. It is of great

importance that these insights are tested and systematized using larger case sets. The available literature is insufficient.

Keywords:

Parents experience, Congenital Malformations, Hirschsprungs disease, Diaphragmatic hernia, Anorectal malformations, Esophageal atresia

# Innehållsförteckning

|   |           |
|---|-----------|
| <b>Abstrakt</b> .....   | <b>2</b>  |
| <b>Abstract</b> .....   | <b>3</b>  |
| <b>Problemområde</b> .....                                      | <b>7</b>  |
| <b>Bakgrund</b> .....   | <b>8</b>  |
| <i>Nationell Högspecialiserad vård i Barnkirurgi</i> .....      | 8         |
| <i>Upplevelser av att ha ett sjukt barn</i> .....               | 9         |
| <i>Perspektiv och utgångspunkter</i> .....                      | 9         |
| KASAM .....   | 10        |
| Familjecentrerad vård .....                                     | 10        |
| <b>Syfte</b> .....  | <b>11</b> |
| <b>Metod</b> .....  | <b>11</b> |
| <i>Urval</i> .....  | 12        |
| <i>Litteratursökningen</i> .....                                | 13        |
| <i>Kvalitetsgranskning</i> .....                                | 15        |
| <i>Analys av data</i> .....                                     | 16        |
| <i>Forskningsetiska avvägningar</i> .....                       | 17        |
| <i>Förförståelse</i> .....                                      | 17        |
| <b>Resultat</b> .....   | <b>18</b> |
| <i>Upplevelser kring att ha ett barn med missbildning</i> ..... | 18        |
| Emotionell berg- och dalbana .....                              | 18        |
| Ansvar utanför sjukhuset .....                                  | 19        |
| <i>Att känna sig delaktig</i> .....                             | 20        |
| Möjlighet för delaktighet .....                                 | 20        |
| Hinder för delaktighet .....                                    | 20        |
| <i>Upplevelser av kommunikation och information</i> .....       | 21        |
| Kommunikation med vårdpersonal .....                            | 21        |
| Att vara beroende av olika sjukhus .....                        | 22        |
| <i>Upplevelsen av stöd</i> .....                                | 23        |
| <b>Diskussion</b> .....   | <b>24</b> |
| <i>Metoddiskussion</i> .....                                    | 24        |
| <i>Resultatdiskussion</i> .....                                 | 27        |
| <b>Konklusion och implikationer</b> .....                       | <b>29</b> |
| <b>Referenser</b> .....   | <b>30</b> |
| <b>Bilaga 1 (1)</b> .....                                       | <b>37</b> |

**Bilaga 1 (2)..... 38**

**Bilaga 1 (3)..... 39**

**Bilaga 2 (1)..... 40**

**Bilaga 2 (2)..... 41**

**Bilaga 2 (3)..... 42**

**Bilaga 2 (4)..... 43**

**Bilaga 2 (5)..... 44**

**Bilaga 3 (1)..... 45**

**Bilaga 3 (2)..... 46**

**Bilaga 3 (3)..... 47**

## Problemområde

Att bli förälder är en process och upplevelse som innebär stora förändringar i livet. Föräldrarna ska hitta sin nya identitet i föräldraskapet, i samspelet och i anknytningen med det nyfödda barnet, och sin nya relation mellan varandra (Stern et al., 2018). I Sverige år 2020 föddes det cirka 114 500 barn (Socialstyrelsen, 2021a). Av de nyfödda barnen är det ungefär 2% som föds med en missbildning som behöver behandlas inom medicinsk eller kirurgisk vård (Christofferson et al, 2015).

De barnkirurgiska diagnoserna inom Nationell Högspecialiserad vård (NHV) motsvarar endast en liten del av de medfödda missbildningarna. År 2020 opererades totalt 113 barn. För barn och familjer som ingår i NHV är omvårdnadsbehoven stora och barnet behöver uppföljningar, både på kort och lång sikt (Socialstyrelsen, 2021b). Omvårdnadsbehoven till den specifika diagnosen kvarstår ofta, även när barnet och familjen ska skrivas ut. Risken finns att föräldrarna inte känner sig trygga, vårdtiden förlängs eller komplikationer tillstöter (Kornburger et al. 2013). Patienterna löper också risk att få komplikationer i framtiden och behöva långtidsuppföljning av ett multidisciplinärt team (Svenska registret för avancerad barn- och ungdomskirurgi, 2019). Uppföljningen innebär besök och kontakt med barnkirurgisk klinik, barnkirurger och specialistsjuksköterskor under hela uppväxten (Christofferson et al., 2015; Engstrand et al., 2015; Frenckner, 2015; Stenström & Arnbjörnsson, 2015). Det innebär att familjen, om de bor långt från det sjukhus som opererat barnet, vid flera tillfällen kan behöva köra många och långa sträckor. Det kan leda till en ekonomisk påfrestning både genom resekostnader och frånvaro från arbetet (Vårdanalys, 2013). I en avhandling av Omling (2019) som handlar om pediatrik kirurgi i Sverige konstateras att det finns relativt få studier som fokuserar på potentiella negativa konsekvenser vid centralisering men däremot fler riskfaktorer som behöver undersökas ytterligare.

I litteraturen finns det begränsat med forskning gällande barn och familjer med NHV-diagnoser utifrån ett familjeperspektiv. Mycket av forskningen som är publicerad handlar om tekniska och specifika moment gällande procedur och den kirurgiska eftervården.

# Bakgrund

## Nationell Högspecialiserad vård i Barnkirurgi

Innan rikssjukvård etablerades i Sverige fanns inte någon samordning på nationell nivå. Under första delen av 2000-talet gjordes en översyn av högspecialiserad vård.

Innan rikssjukvård etablerades i Sverige fanns inte någon samordning på nationell nivå. Under första delen av 2000-talet gjordes en översyn av högspecialiserad vård. Vissa landsting hade tagit på sig riksuppdrag men fick svårt att få tillräckligt många patienter med dessa specifika diagnoser och bedömdes därför inte kunde bedriva sjukvård med hög kvalitet. En nationell samordning av den högspecialiserade vården genomfördes därför (Vårdanalys, 2013). I februari 2017 gav regeringen Socialstyrelsen uppdraget att fasa ut det tidigare systemet kring rikssjukvård och samtidigt utforma en arbetsprocess för att samla högspecialiserad vård på nationell nivå. Tanken är att samlad kompetens leder till ökad kvalitet och säkerhet för patienterna och målet ska vara att kunskap, kvalitet och patientsäkerhet inom hälso- och sjukvården ska utvecklas och förbättras samt leda till att resurser används mer effektivt (Socialstyrelsen, 2022). År 2016 kom beslutet att vissa högspecialiserade diagnoser inom barnkirurgi skulle centraliseras till två sjukhus i Sverige (Socialstyrelsen, 2017). Skånes universitetssjukhus i Lund och Karolinska universitetssjukhuset i Stockholm beviljades tillstånd i december 2017 och implementerades i juni 2018 (Socialstyrelsen, 2021a).

De diagnoser inom barnkirurgi som omfattas av centraliseringen är: *Esofagusatresi (EA)* (1:3000) en medfödd missbildning där matstrupen inte har vuxit ihop som den ska (Witt et al. 2019). *Anorektala missbildningar (ARM)* (1:4000–5000) en samling av olika typer av missbildningar i ändtarm och bäckenbotten inklusive urinvägar (Tofft, 2021). EA och ARM är två av de missbildningar som ingår i vad som kallas VACTERL-association, där varje bokstav står för en missbildning. Barnet måste ha tre eller fler av de missbildningar för få diagnosen (Socialstyrelsen, 2016). *Hirschsprungs sjukdom (HSCR)* (1:5000) en avsaknad av ganglieceller i den distala tarmen som gör att peristaltiken i tarmen inte fungerar optimalt (Amiel & Lyonnet, 2001). *Diaphragmabråck (CDH)* (1:2000-5000) är en medfödd missbildning där det finns ett hål



i diafragmamuskeln. Beroende på hålets storlek kan det i olika grad medföra att bukorgan förflyttar sig upp i thorax och påverkar utvecklingen av fostrets lungor (Lee et al. 2021).

## Upplevelser av att ha ett sjukt barn

När ett barn blir sjukt eller föds med en missbildning eller sjukdom påverkas hela familjen. Föräldrarna, som är barnets viktigaste anknytningspersoner och som har det yttersta ansvaret för sitt barns hälsa och liv, ställs inför stora utmaningar (NOBAB, u.å). I en kvalitativ studie av Hall (2005) undersöktes föräldrars upplevelser av att ha ett svårt sjukt barn. Det framkom att föräldrar upplevde det svårt att förstå att deras nyfödda barn behövde omfattande sjukhusvård. En konflikt i föräldraskapet var att behöva lämna över delar av sitt ansvar till vårdpersonal. De beskrev miljön som främmande och upplevde sig vara i en utsatt position. Det föräldrarna i studien lyfte fram som viktigast under vårdtiden var närheten till sitt barn. Separation i samband med att föräldrarna behövde lämna barnet för att åka hem eller sova någon annanstans upplevdes som en extremt stressande situation (Hall, 2005). Föräldrarna hamnar ofta i kris och deras normala förmåga att tänka och kommunicera på är satt ur spel (Radell & Bredlöv, 2015). En studie av Moe et.al. (2017) beskriver att föräldrar till barn som är sjuka från födseln ofta upplever att vara i en katastrofsituation vilket kan leda till ångest, depression, sorg och stress. Föräldrarna kan lätt glömma bort sin egen hälsa och välmående, eftersom deras prioritering är barnet (Ygge, 2015). Föräldrar riktar all sin uppmärksamhet mot det sjuka barnet, och syskon som är friska kan uppleva att de glöms bort (Ygge, 2015). Syskon som är barn kan ha olika sätt att reagera på beroende på ålder, mognad, personlighet och kulturell bakgrund. Det kan uppstå en konflikt för föräldrarna att dela sitt fokus mellan det sjuka barnet och syskonen, samtidigt som de behöver ta hand om sitt eget välmående. Föräldrarna kan ha behov av att ha andra närstående som är tillgängliga för avlastning (Radell & Bredlöv, 2015).

## Perspektiv och utgångspunkter

Aron Antonovskys teori bygger på ett salutogent perspektiv, som handlar om hälsans ursprung och vad det är som bidrar till att hälsa kan förbättras och bevaras. Perspektivet fokuserar på att hantera sjukdom i en kombination av sjukvård och mediciner men också genom att bevara och ta hand om det friska hos människan (Antonovsky, 1993).

### *KASAM*

Antonovskys forskning går ut på att förstå vad det är som hjälper människan att bevara och förbättra hälsan. Känslan av sammanhang (KASAM) består av tre områden: begriplighet, hanterbarhet och meningsfullhet samt sambandet mellan dem. Begriplighet handlar om att människan ska förstå vad det är som händer och att förståelsen bidrar till överblick och sammanhang. Hanterbarhet innebär att individen upplever att ha resurser för att hantera olika händelser i livet. Meningsfullhet handlar om att det finns olika områden i livet hos individen som har stark betydelse och som hen engagerar sig i. För att kunna avgöra hur stark en individs KASAM är måste de tre faktorerna ses i ett samband. En stark KASAM kan betyda att individen har lättare att klara av utmaningar och svårigheter i motsättning till någon som har en svag KASAM (Antonovsky, 1993). KASAM kan därför användas som teoretiskt perspektiv när föräldrars upplevelser undersöks. I en studie av Hall (2005) beskriver föräldrar upplevelsen av att ha ett nyfött svårt sjukt barn som att vara ute i djungeln i en annan värld utan karta. De försöker att greppa vad som har hänt och pendlar mellan olika känslor såsom chock, rädsla, oro och nedstämdhet (Hall, 2005).

### *Familjecentrerad vård*

Inom barnsjukvården eftersträvas det att vårdpersonalen jobbar utifrån ett familjecentrerat förhållningssätt (Drevenhorn, 2021). All planering, utförande och evaluering av barnets vård ska vara grundad i ett gott partnerskap mellan vården, barnet och familjen (Hallström, 2015). De fyra kärnbegreppen *Värdighet och respekt*, *Information*, *Delaktighet* och *Samarbete* är essentiella för att skapa en god familjecentrerad vård (Institute for Patient- and Family-Centred Care (IPFCC), 2016). Sjuksköterskan ska ge omvårdnad i överensstämmelse med vetenskap och beprövad

erfarenhet (Broberg, 2015) och fungera som familjens företrädare i situationer inom hälso- och sjukvård (Riksföreningen för Barnsjuksköterskor & Svensk sjuksköterskeförening, 2016). En viktig fråga handlar om vad vårdpersonalen kan och bör göra för att hjälpa familjen utan att kränka deras integritet, vilket kan vara en utmaning med tanke på den maktfördelning som alltid finns i möte med vården (Centrum för forsknings- & bioetik, 2021). Eftersom vårdgivaren har mer kunskap och kompetens och patienten med familj är i utsatt position med en beroendeställning skapas det en maktobalans (Höglund, 2021). I en kvalitativ studie av Reeder och Morris (2021) undersöktes det vilken roll föräldrarna upplevde att de tog kring omvårdnaden av deras barn i specialistvården. Där framkom det att föräldrarna prioriterade sjuksköterskornas professionella åsikter framför sina egna. Det resulterade i att föräldrarna inte värderade sina egna åsikter och reflektioner lika högt och detta påverkade deras medverkan i barnets vård. Föräldrarna litade mer på sjuksköterskornas erfarenhet och stöd och upplevde att det var svårt att ta plats, ställa frågor och vara aktiva i vården av barnet (Reeder & Morris, 2021). Obalansen förstärktes av att familjen inte var på hemmaplan medan vårdgivaren var i en bekant miljö och utövade sin profession. Asymmetrin i maktfördelningen ställer stora krav på hur samarbetet sker (Höglund, 2021). För föräldrarna var det viktigt att få information och att förstå den, dock var det flera föräldrar som upplevde att endast information inte var tillräckligt för att känna nog empowerment för att aktivt delta i omvårdnaden och i beslut gällande deras barns vård (Reeder & Morris, 2021).

## **Syfte**

Att belysa hur föräldrar upplever att ha ett barn med en diagnos inom Nationell Högspecialiserad vård för barnkirurgi.

## **Metod**

Den aktuella studien gjordes som en systematisk litteraturstudie som enligt Forsberg & Wengström (2013) innebär att sammanställa tidigare genomförd empirisk forskning för att besvara en frågeställning med målet att utforska en kunskapslucka. Författarna har följt de sju steg som Statens beredning för medicinsk utvärdering (SBU) har utvecklat och som Willman et al. (2011) gjort en översättning på.

## Urval

Studien bygger på kvalitativ forskning, då det undersöker föräldrars upplevelser. För att hitta och avgränsa relevant forskning strukturerade författarna upp syftet enligt PEO (Tabell 1). PEO står för "population", "exposure" och "outcome" och bryter ned syftet i olika balkar som kan underlätta för att skapa inklusion- och exklusionskriterier, samt skapar relevant översikt i sökblock (Karolinska institutet, 2022).

Tabell 1. Strukturering av syftet i PEO

|            |   |
|------------|---|
| Population | Föräldrar till sjuka barn (0-18år)  |
| Exposure   | Barn med diagnoser inom NHV för barnkirurgi <ul style="list-style-type: none"><li>• Diafragma bråck</li><li>• Esofagusatresi</li><li>• Anorektala Missbildningar</li><li>• Hirschprungs sjukdom</li></ul> |
| Outcome    | Föräldrars upplevelser  |

### Inklusionskriterier:

- artiklar med kvalitativ metod
- föräldrar till sjuka barn (0-18 år)
- barnen hade diagnoser innanför Nationell Högspecialiserad vård inom Barnkirurgi
- skrivna på engelska eller svenska

Exklusionskriterier:

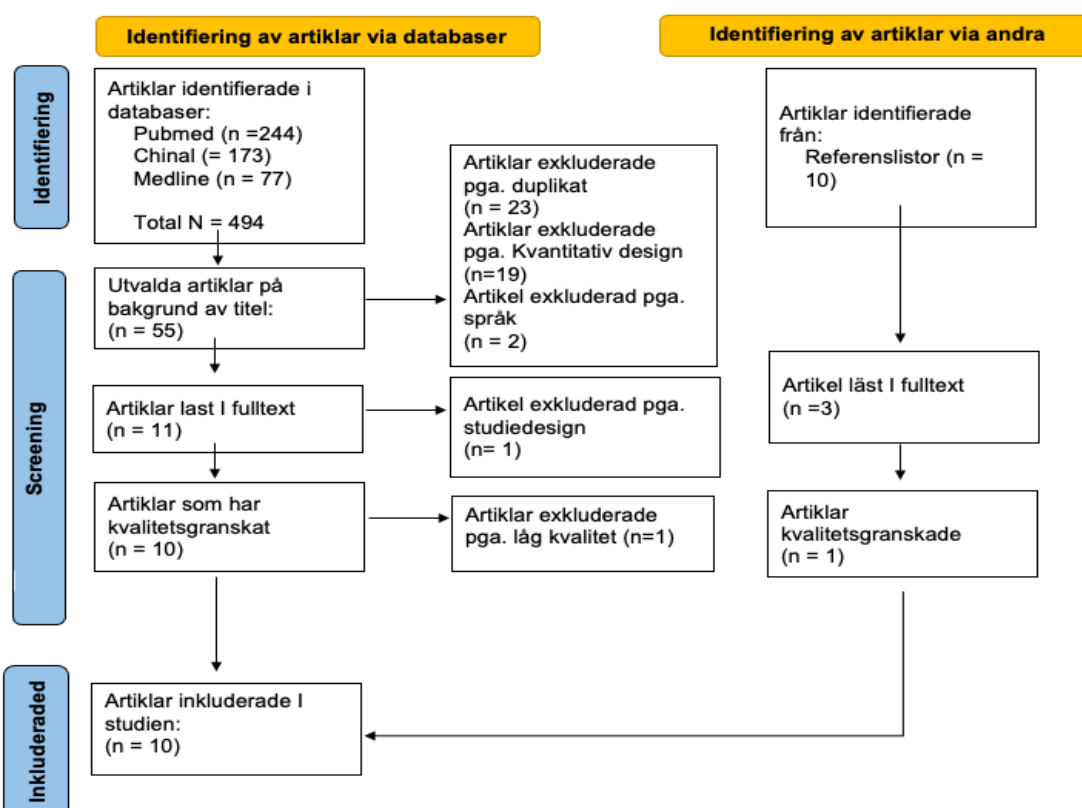
- Artiklar som till störst del fokuserade på barnens (patientens) upplevelser
- Artiklar som inte preciserade vilka diagnoser inom medfödda missbildningar som studien fokuserade på.

## Litteratursökningen

Först undersöktes olika databaser för att kartlägga vilka som skulle kunna innehålla relevanta artiklar för att besvara syftet. Databaserna som valdes var: Cinahl, Pubmed och Medline. Cinahl fokuserar på forskning inom arbetsterapi, fysioterapi och omvårdnad. Medline och Pubmed är databaser som innehåller forskning inom medicin och omvårdnad (Willman et.al., 2011). Utifrån de områden som kom fram via PEO, så användes SvenskMESH för att hitta ämnesord som potentiellt skulle kunna leda till relevanta artiklar. Områden som undersöktes var "centralized hospital care", "tertiary care", "pediatric surgery" samt individuella sökningar på alla diagnoser som ingår i Nationell Högspecialiserad vård för barnkirurgi som kan ses i tabell 1. De preliminära sökningarna gav ett brett utbud där utvalda artiklars mesh-termer och ämnesord blev undersökta. Titlar blev granskade för att hitta nyckelord till sökstrategi. Vidare utvecklades olika sökstrategier tillsammans med bibliotekarien för att se över att alla områden i syftet fick olika sökblock, samt korrekt placering av mesh-termer, fritext och subject headings i de olika databaserna.

Varje sökblock söktes individuellt och där det var nödvändigt så användes den booleska sökoperatören OR för att kunna bredda respektive sökblock. Författarna såg att det fanns flera olika termer för barn i de preliminära söken vilket ledde till ett sökblock med " child OR infant OR newborn" för att vara säker på att alla relevanta artiklar kom med. När alla sökblock var utformade så användes den booleska sökoperatören AND mellan de olika blocken för att kunna avgränsa till relevanta träffar. Den booleska operatören NOT användes vid ett söktillfälle för att utesluta studier innehållande medfödda "hand" eller "lip" missbildningar. Vid de första

systematiska sökningarna i PubMed och Medline användes söktermer som: pediatric surgery, parents experience, child OR newborn OR infant, congenital abnormalities OR congenital malformations OR hirschsprungs disease OR esophageal atresia OR anorectal malformations OR congenital diaphragmatic hernia. Vid sökning i Cinahl fick sökblocken med termen pediatric surgery plockas bort, då det inte resulterade i några träff. Varje diagnos blev även sökt individuellt tillsammans med övriga relevanta sökblock. Efter de första systematiska sökningarna uppmärksammades författarna på att flera artiklar även använde söktermer som “imperforate anus” och samlingsbegreppet “VACTERL”, varpå nya sökningarna blev gjorda i alla databaserna. Sökningar på VACTERL resulterade inte i några användbara resultat. Alla relevanta sökningarna kan ses i bilaga (1). Totalt resulterade de samlade sökningarna på 494 träffar, av dessa valdes 55 artiklar ut som relevanta, vilka baserades på titel samt abstrakt och blev lästa. I artiklar som uteslöts var 23 stycken duplikat, 19 stycken använde kvantitativ metod och 2 fanns endast på spanska. Antal artiklar som lästes i fulltext var 11 och 1 artikel uteslöts på grund av studiedesign. Alla relevanta artiklar, både kvantitativa och kvalitativa, referenslistor genomsöktes för att identifiera artiklar som inte framkommit under de systematiska sökningarna. Vilket resulterade i 1 artikel som inkluderades i studien. Totalt innehåller studien 6 artiklar från pubmed, 2 från Cinahl, 1 från Medline samt 1 artikel via referenslistor. Fullständig artikelöversikt presenteras i bilaga (2).



Figur 1: Flödesschema

### *Kvalitetsgranskning*

SBU:s granskningsmall användes för bedömning av studier med kvalitativ metodik (Bilaga 3) för att jämföra kvaliteten och trovärdigheten i studierna. Granskningen av artiklarna genomfördes var för sig för att minska risken för subjektivitet. Resultatet av granskningen diskuterades tillsammans med aktuella artiklar valts ut. Poängsystemet som Willman et al. (2011) beskriver har använts för att jämföra de olika studierna. Det innebär att varje positivt svar för studien i granskningsprotokollet gav ett poäng. Oklart eller negativt svar tilldelades inte något poäng. Bedömningen gav en poängsumma som sedan räknades om till procent av den totala summan. Möjligheten att väga och jämföra studier mot varandra ökar om procentberäkning användes enligt Willman et al. (2011). Författarna har valt att dela in procentsatsen i hög, medel och låg, varav den sist nämnda räknades som icke godkänd och exkluderades. Denna studie ansågs ha för stor risk för bias och brister i resultatets trovärdighet. Elva artiklar kvalitetsgranskades varav tio inkluderades i studien. Resultatet av granskningarna presenteras i tabell 2.

Tabell 2. Procent för granskningsmall och antal artiklar.

| Kvalitet | Procent | Antal artiklar |
|----------|---------|----------------|
| Hög      | 80-100  | 5              |
| Medel    | 60-79   | 5              |
| Låg      | 0-59    | 1              |

## Analys av data

Författarna har följt den analysprocess som Wilman et al. (2011) beskriver. Alla artiklars resultatdelar lästes upprepade gånger var för sig för att få god kännedom om texten. Koder som ansågs svara på syftet markerades individuellt och diskuterades sedan gemensamt. De koder som författarna kom överens om efter diskussion extraherades från originalartikel och placerades tillsammans med källa i ett separat dokument, vilket sedan lästes igenom individuellt och tilldelades en färg. De koder som beskrev upplevelser av liknande fenomen fick samma färg. Efter diskussion hade 12 färgkoder framkommit, vilka placerades i 8 underteman. De underteman som korrelerade med varandra fick stå under samma huvudtema, vilka blev 4 stycken (Tabell 3). Varje undertema diskuterades, tolkades och skrevs samman till resultatet. De koder som beskrev samma upplevelse samlades med alla källor bakom. De övriga koderna användes för att nyansera undertemat. I det presenterade resultatet användes vissa underteman, som ansågs förtydliga texten, som underrubriker. Citat användes i resultatet för att förtydliga utvalda kategorier (SBU, 2013).

Tabell 3: Exempel

| Kod  | Undertema                      | Huvudtema  |
|--|--------------------------------|--|
| <i>On returning home, respondents felt insecure about their own abilities to care for a child with CDH and the long-term consequences of the disease.</i>  | Ansvar utanför sjukhuset       | Upplevelser kring att ha ett barn med missbildning |
| <i>The parents described how the healthcare professionals involved them in the hospital care from the beginning by giving them some tasks in emergency situations</i>  | Möjlighet för delaktighet      | Att känna sig delaktig                             |
| <i>Naturally, parents are worried about the future of their children. The lack of sufficient information about their child's future and sometimes contradictory information about the disease of child and the way of care also will be added to this confusion.</i> | Kommunikation med vårdpersonal | Upplevelser av kommunikation och information       |



|   |                               |                            |
|---|-------------------------------|----------------------------|
| <p><i>Some parents stated that they received valuable emotional support through counseling with a social worker, psychologist or deacon at the hospital. Even so, dissatisfaction was expressed with the content focusing on practical issues rather than on the core experience of having a sick child</i></p> | <p>Stöd från vårdpersonal</p> | <p>Upplevelsen av stöd</p> |
|---|-------------------------------|----------------------------|

## Forskningsetiska avvägningar

De inkluderade studierna har följt Helsingforsdeklarationen som Världsläkarförbundet har tagit fram (World Medical Association, 2018). Det är en samling etiska principer rörande medicinsk forskning där människor deltar. Enligt Polit & Beck (2020) ska forskningen baseras på de tre etiska principerna, godhet, respekt för den mänskliga värdigheten och rättvisa. Författarna är införstådda med vikten av att ha ett forskningsetiskt övervägande vid studiens alla delar, både inför, under och efter genomförandet (Kjellström, 2020). Litteraturstudien fokuserar på information inhämtat genom intervjuer. För att säkerställa att informationen som användes inte skulle ha blivit inhämtad på ett felaktigt sätt var det av vikt att samtliga artiklar antingen skulle ha blivit forskningsetiskt godkända eller ha en etisk argumentation samt att datainsamlingen hade presenterats tydligt (Polit & Beck, 2020). Studiens metoddel har presenterats med full transparens och alla delar av processen vid inhämtning av information har blivit redovisade. Vid analysen har alla delar av artiklar som besvarat syftet använts och resultatet är presenterat endast med utgångspunkt i analysens fakta.

## Förförståelse

Författarna har flera års erfarenhet av att arbeta på en barnkirurgisk enhet som vårdar barn med de inkluderade diagnoserna. Medvetenhet om att denna erfarenhet kan påverka vid tolkning av material har under processens gång diskuterats regelbundet.

## Resultat

Resultatet är baserat på 10 artiklar där intervjuer med föräldrar angående deras upplevelser av att ha ett barn som fötts med en missbildning har genomförts. Resultatet presenteras i följande 4 huvudteman, *Upplevelser kring att ha ett barn med missbildning*, *Att känna sig delaktig*, *Upplevelser av kommunikation och information* och *Att få stöd*, samt 6 underteman.

### Upplevelser kring att ha ett barn med missbildning

När ett barn föds med missbildning skapar det oro för hela familjen. Familjen går från en normal vardag till att försöka skapa någon form ny normal tillvaro trots vård både på sjukhus och i hemmet.

#### *Emotionell berg- och dalbana*

Föräldrarna beskrev många olika känslor som chock, kaos, oro och rädsla när de fick ett barn med missbildning (Kassa et al., 2019; Fleck et al., 2017). Mycket av rädslan var starkt knuten till den osäkerhet som diagnosen medförde, att föräldrarna inte visste hur den närmsta tiden eller framtiden skulle se ut för vare sig barnet eller för familjen (Kassa et al., 2019; Fleck et al., 2017; Hinton et al., 2018; Petit-Steeghs et al., 2019).

*Coping with all the uncertainties was probably the biggest challenge. You hear percentages and survival rates and what the physicians will be doing, but how it will be for you and your child, is hard to estimate.* (Petit-Steeghs et al., 2019 s. 6)

Studierna av Abbasiasl et al. (2021) och Nisell et al. (2003) beskrev att föräldrarna upplevde att det saknades rutiner och erfarenhet hos personalen på förlossningen på hur de hanterade situationen när ett barn föds med en missbildning. Att inte få hålla sitt nyfödda barn kunde upplevas av föräldrarna som ett hinder att utveckla den första anknytningen (Kassa et al., 2019; Fleck et al., 2017). Föräldrarna upplevde att barnet på grund av sin missbildning inte fick samma start på livet som friska nyfödda barn, vilket ledde till skuld känslor (Wallace et al., 2022).

I studierna av Stewart et al. (2022), Fleck et al. (2017), Wigander et al. (2018), Petit-Steeghs et al. (2019) och Kassa et al. (2019) beskrev föräldrars olika strategier för att klara av den svåra situationen de befann sig i. Dessa strategier bestod i att ta en dag i taget (Wigander et al., 2018; Fleck et al., 2017) samt att försöka bevara hoppet genom att förlita sig på sådant de visste säkert. Det kunde vara information om medicinska fakta och barnets nuvarande status vid kontroller och uppföljningar (Petit-Steeghs et al., 2019).

### *Ansvar utanför sjukhuset*

För föräldrarna var det en stark motivation och efterlängtad att få komma hem och själva ta ansvar för sitt nyfödda barn (Fleck et al., 2017). Att komma hem kunde även innebära en stor grad av osäkerhet och konstant oro för att inte kunna ta hand om barnet. Den medicinska delen av omvårdnaden upplevdes som utmattande för familjerna (Petit-Steeghs et al., 2019; Stewart et al., 2022; Wallace et al., 2022).

De medicinska procedurer som behövde hanteras av föräldrarna i hemmet varierade på olika sätt. De föräldrar som regelbundet behövde dilatera anus och ge lavemang på barnet upplevde detta som särskilt svårt och lade en stor ansvarskänsla på föräldrarna (Kassa et al., 2019; Nisell et al., 2003). Föräldrar beskrev att procedurerna upplevdes som ett övergrepp på barnen när de behövde hållas fast för att utföra procedurerna mot deras vilja (Nisell et al., 2003).

*. . . it was no fun time, the morning and evening it was torture for him.* (Kassa et al., 2019 s. 7)

Flera föräldrar beskrev det även som svårt att lämna huset tillsammans med barnet i sociala situationer. De var osäkra på hur de skulle hantera situationen om barnet skulle sätta i halsen eller börja läcka avföring utanför hemmet och hur omgivningen skulle reagera. Det kunde leda till att aktiviteter blev noggrant planerade och ibland inställda då de var lättare att hantera i hemmet (Nisell et al., 2003; Stewart et al., 2022).

## Att känna sig delaktig

Föräldrarna beskrev både möjligheter och hinder för delaktighet. Fokus var på möjligheter där de kunde delta i vården trots hinder som att inte få möjlighet att hålla barnet eller fysiskt inte kunna vara i närheten.

### *Möjlighet för delaktighet*

Att få delta i barnets vård på sjukhuset upplevdes som viktigt för föräldrarna (Kassa et al., 2019; Fleck et al., 2017; Petit-Steeghs et al., 2019). Sjukvårdspersonalen upplevdes som nyckelfaktorn för hur deltagandet för föräldrarna såg ut (Kassa et al., 2019; Fleck et al., 2017). Tydliga planer för fördelningen av omvårdnadsmoment mellan föräldrarna och sjukvårdspersonalen bidrog till en upplevelse av trygghet (Kassa et al., 2019). Föräldrar beskrev att deras delaktighet kunde komma till uttryck på flera olika sätt. Från att bara hålla en hand, till att göra praktiska moment eller sjunga för barnet samt pumpa bröstmjolk (Kassa et al., 2019; Fleck et al., 2017). Föräldrarna var nöjda med hur de inkluderades i omsorgen kring barnen dock upplevde de att delaktigheten kunde ha varit bättre, särskilt när det kom till beslut kring planeringen av barnets vård (Fleck et al., 2017; Petit-Steeghs et al., 2019).

### *Hinder för delaktighet*

Flera studier beskrev att föräldrarna oftast blev separerade från sina barn kort tid efter förlossningen vilket skapade oro, nedstämdhet och en känsla av att missa den första tiden med sina barn (Fleck et al., 2017; Nisell et al., 2003; Kassa et al., 2019). Särskilt påtagligt var det när barnet behövdes transporteras till ett specialistsjukhus och föräldrarna inte kunde åka med i transporten (Fleck et al., 2017; Kassa et al., 2019).

På sjukhuset varierande det hur föräldrarna kunde vistas tillsammans med sitt barn utifrån vilken avdelning de låg på. Avståndet när man inte kunde bo tillsammans med sitt barn kunde upplevas som ett hinder för den emotionella anknytningen (Petit-Steeghs et al., 2019). Andra beskrev att behöva bo på mödravården eller ett patienthotell och tvingas se andra familjer med sina friska barn upplevdes svårt när de själva var så ledsna över sin egen familjesituation (Kassa et al.,

2019). Att få bo tillsammans med sitt barn på avdelningen gav en känsla av att barnet var mer deras eget (Fleck et al., 2017). Föräldrarna beskrev dock att det kunde vara skönt att komma bort från avdelningen ibland och att det kunde hjälpa med att skapa en balans mellan livet på sjukhuset och den normala vardagen. Att försöka kombinera dessa kunde skapa stress för föräldrarna (Klacksell et al., 2007; Kassa et al., 2019; Petit-Steeghs et al., 2019).

## Upplevelser av kommunikation och information

Kvaliteten på kommunikation och information från vårdpersonal varierade stort och påverkade föräldrarnas känsla av kontroll och stress.

### *Kommunikation med vårdpersonal*

Föräldrarna upplevde oftast att kommunikationen mellan dem och sjukvårdspersonalen fungerade bra (Kassa et al., 2019; Hinton et al., 2018; Petit-Steeghs et al., 2019). De fick god detaljerad information given på ett tydligt och objektivt sätt samt fick möjlighet att ställa frågor (Kassa et al., 2019; Hinton et al., 2018). Dock fanns det ofta längre perioder av osäkerhet när läkarna inte kunde svara på föräldrarnas frågor. Dessa perioder var svåra men så länge som kommunikationen var tydlig och rak så hjälpte det föräldrarna i den stressande situationen (Hinton et al., 2018). Vissa föräldrar upplevde att de hade blivit lyssnade på och blivit betraktade som experter på sitt eget barn (Kassa et al., 2019) medan andra upplevde att de inte blivit tagna på allvar när de uttryckte oro, önsknings och berättade att de upplevde att deras barn inte fick den vård de behövde (Kassa et al., 2019; Wallace et al., 2022).

Föräldrarna kunde också uppleva att de antingen inte fick tillräckligt eller olika information från vårdpersonalen angående barnens diagnos, vård och behandlingar (Kassa et al., 2019; Abbasiasl et al., 2021; Hinton et al., 2018; Wallace et al., 2022; Nisell et al., 2003). Denna brist på kommunikation ledde till att föräldrarna upplevde att de tappade kontrollen och skapade stress

(Petit-Steeghs et al., 2019). Vilket ledde till att föräldrarna fick leta reda på informationen på egen hand (Kassa et al., 2019; Hinton et al., 2018; Wallace et al., 2022; Fleck et al., 2017). Föräldrarna ansåg att de borde fått bättre information om framtiden och svårigheterna som väntade dem (Abbasisasl et al., 2021; Wallace et al., 2022; Nisell et al., 2003).

*There was not enough information and all the hell that has been, you did not expect it.*

(Nisell et al., 2003 s. 426)

#### *Att vara beroende av olika sjukhus*

Kassa et al. (2019) och Petit-Steeghs et al. (2019) beskriver hur föräldrar upplevde kommunikationen med och mellan det lokala sjukhuset och specialistsjukhuset, både på ett positivt och negativt sätt (Kassa et al., 2019; Petit-Steeghs et al., 2019). Föräldrar beskrev att personalen på det lokala sjukhuset inte hade tillräcklig och korrekt kunskap angående missbildningar vilket resulterade i felaktig information (Kassa et al., 2019).

Efter utskrivning fungerade kommunikationen med specialistsjukhuset ofta bra och det var lätt att komma i kontakt med en läkare eller sjuksköterska som kände till barnets speciella situation, vilket var av stort värde för föräldrarna (Kassa et al., 2019; Petit-Steeghs et al., 2019; Hinton et al., 2018). Däremot var det många som hade problem att efter utskrivning komma i kontakt med det lokala sjukhuset, det dröjde innan de fick en ansvarig läkare och de visste inte vem de skulle kontakta (Kassa et al., 2019; Petit-Steeghs et al., 2019). Föräldrar upplevde även att kommunikationen mellan sjukhusen var bristfällig vilket ledde till att de själva fick ta tag i att koordinera vården, jaga rätt på olika personer och ibland tjata för att få rätt uppföljning (Kassa et al., 2019; Petit-Steeghs et al., 2019). Ibland blev inte informationen mellan sjukhusen korrekt vilket gjorde att föräldrarna inte fick den hjälp de hade önskat från det lokala sjukhuset (Kassa et al., 2019)

*. . . we have heard that you can do this so well*

*that we haven't taken the time to . . . we haven't learned it.* (Kassa et al., 2019 s. 9)

## Upplevelsen av stöd

När föräldrar beskriver stöd i studierna innebar det stöd från familjen, andra närstående, sociala medier, stödgrupper och sjukvårdspersonal.

Stöd från partner och andra nära familjemedlemmar samt vänner beskrevs som viktigt och positivt av flera föräldrar (Wigander et al., 2018; Abbasiasl et al., 2021; Wallace et al., 2022). Dock var det bara några ytterst få som kunde hjälpa till med barnpassning, av barnet med missbildning, där de kände att de kunde lämna över ansvaret (Stewart et al., 2022; Wallace et al., 2022). Föräldrar kunde uppleva negativa reaktioner, som att folk stirrande, fick panik och gav kommentarer när de var ute i samhället med barnet (Abbasiasl et al., 2021; Wallace et al., 2022; Stewart et al., 2022). Intrycken följde föräldrarna i flera år (Abbasiasl et al., 2021).

Att inte ha stöd från familj och vänner gjorde att många familjer kände sig ensamma och isolerade (Wigander et al., 2018; Klacksell et al., 2007; Wallace et al., 2022; Stewart et al., 2022; Hinton et al., 2018; Kassa et al., 2019). Föräldrarna beskrev hur de hade svårt att relatera till andra och hur familjemedlemmar inte ville eller kunde hjälpa till eftersom de inte förstod missbildningens komplexitet (Wallace et al., 2022; Stewart et al., 2022).

*Small talk about babies and having children with friends and family was non-existent as I could not relate to the normal 'problems' people have. (Wallace et al., 2022 s. 4)*

Att få prata med andra föräldrar i samma situation var något som föräldrarna beskrev antingen som en önskan att de hade velat göra (Klacksell et al., 2007; Nisell et al., 2003), eller att de hade kontakt med andra och upplevde det som oerhört positivt (Kassa et al., 2019; Petit-Steeghs et al., 2019; Wallace et al., 2022; Abbasiasl et al., 2021; Hinton et al., 2018; Fleck et al., 2017; Stewart et al., 2022). Kontakt med andra föräldrar till barn med samma diagnos, oavsett om det var på internet eller via en stödförening, gjorde att föräldrarna kände hopp om framtiden, kunde dela erfarenheter och tips, uppmuntrade varandra när det var tungt samt att veta att det fanns andra som gick igenom samma sak som de själva (Wallace et al., 2022; Hinton et al., 2018; Fleck et al.,

2017; Petit-Steeghs et al., 2019). Vissa beskrev att stödet från andra i liknande situation var viktigare än stödet från familj och vänner (Petit-Steeghs et al., 2019).

*“It just makes it a bit real, you know, that you aren’t the only one.”*

(Hinton et al., 2018)

Studierna visade att föräldrarna oftast var nöjda med stödet de fått från personalen på sjukhuset, vilket inkluderande barnläkare, barnsjuksköterskor, dietister, logopedier, kuratorer, psykologer och sjukhuspräster (Klacksell et al., 2007; Wallace et al., 2022; Nisell et al., 2003; Petit-Steeghs et al., 2019; Hinton et al., 2018; Kassa et al., 2019). Att ha en ansvarig sjuksköterska som föräldrarna kunde vända sig till och som kände just deras barns sjukdomshistoria och problematik var extremt viktigt (Klacksell et al., 2007; Nisell et al., 2003; Hinton et al., 2018).

Dock fanns det föräldrar som saknade stöd från vården (Kassa et al., 2019; Wallace et al., 2022; Stewart et al., 2022). Några föräldrar hade fått stöd via kuratorer, psykologer eller sjukhuspräster men var missnöjda med att fokus hade legat mer på det praktiska problemen istället för kärnproblemet som var att de hade ett barn med missbildning (Kassa et al., 2019). Föräldrarna upplevde att de lämnades vind för våg och att de ibland fick kämpa för att få komma i kontakt med professionell hjälp eftersom de inte blev trodda när de sa att något var fel (Wallace et al. 2022; Stewart et al. 2022).

## **Diskussion**

### **Metoddiskussion**

I metoddiskussionen lyfter författarna de viktigaste metodologiska avvägningarna och argumenterar kring de valen som gjorts och som kan ha påverkat studiens trovärdighet, tillförlitlighet och överförbarhet.



Val av analysmetod diskuterades mellan författarna med hänsyn till vilken inverkan författarnas förförståelse eventuellt skulle ha på analysen och därmed tolkningen av resultatet. Att använda de beskrivna stegen från Willman et al. (2011) om koder och tematisering upplevdes som en tydlig struktur och kunde hjälpa författarna att hantera sin förförståelse. Vid analys av materialet lades det stor fokus på att tydligt markera vilka koder som tillhörde de olika studierna för att kunna behålla en transparens och säkerställa att de underteman som framkom var representerade av flera studier. Författarna kände även att det var av vikt att flertalet diagnoser var representerade under varje undertema så att inga resultat endast speglade en specifik diagnos. Författarna anser att syntesen av studierna gjordes när alla underteman var bestämda och en tolkning gjordes där både liknande och olika upplevelser av samma fenomen presenterades. Hade en annan analysmetod valts där syntesen genomförs tidigare i processen utan källor hade det eventuellt kunnat påverka resultatet i en annan riktning. Författarna upplever att den valda metoden, med tydlig källhänvisning, ändå styrker studiens trovärdighet.

Den systematiska sökningsprocessen bestod av både breda och snäva sökningar för att garantera att alla relevanta artiklar identifierades. Generella sökord som till exempel "congenital malformations" användes i blocken för att säkerställa att inte någon artikel med de inkluderade missbildningarna missades. Sökningar med identifierade sökord resulterade i ett stort antal träffar men ledde även till nya sökord, exempelvis "VACTERL", vilket genererade ytterligare sökningar. Under de bredare sökningarna framkom det att forskningen kring missbildningar är överrepresenterade av medfödda hjärtmissbildningar både i antal kvalitativa studier, men även metasynteser. Författarna upplevde vid sökningen att det skulle bli svårt att få en jämn fördelning mellan de inkluderade artiklarna, utan att en specifik diagnos skulle överrepresentera resultatet, och valde därför efter diskussion att exkludera de diagnoser som inte ingår i NHV för barnkirurgi. Detta kan ha påverkat resultatet, men författarna anser att tillförlitligheten ökar då resultatet jämnt fördelat representerar diagnoserna för barnkirurgi inom NHV. Författarna har genomfört strukturerade sökningar och upplever att alla relevanta artiklar har inkluderats. Dock finns alltid en viss risk att någon/några artiklar har missats på grund av att sökningar inte gjorts i alla medicinska databaser.

Enligt SBU (2013) bör granskning av de inkluderade studierna genomföras för att minska risken att resultaten som ska analyseras inte har för hög bias och därmed minskad trovärdighet. Genom att använda SBU:s granskningsmall gav det författarna ett verktyg att utvärdera artiklarnas trovärdighet. Det finns både fördel och nackdel med att använda poängsystemet som författarna valde. Fördelar är att det pekar ut kvalitetsbrister i studierna och ger en möjlighet att jämföra olika studier. Nackdelen är dock att det kan ge en falsk känsla av att kvalitetsgranskningen blir exakt (Willman et al., 2011). Trovärdigheten ökar även eftersom författarna kvalitetsgranskade artiklarna individuellt så att de inte skulle bli påverkade av varandra. När författarna jämförde sina granskningar så visade det sig att de hade kommit fram till ungefär samma resultat, vilket även det ökar tillförlitligheten. Av de 10 artiklar som inkluderades i studien bedömdes fem ha hög metodologisk kvalitet och resterande fem ansågs ha måttliga brister. Bristerna bestod framförallt av att forskarnas bakgrund inte var presenterad och eventuell kunde ha någon relation till informanterna. Andra brister som identifierades var att i några av studierna var antalet informanter få, dock hade urvalet utförts på ett lämpligt sätt. Det var tydligt att insamlad data var de som använts i resultaten samt att analysmetoderna var lämpliga. Författarna ansåg att eftersom studiernas metoddelar var så pass tydligt beskrivna så kunde de inkluderas trots bristerna. En artikel med stora brister exkluderades.

Nationell Högspecialiserad Vård i barnkirurgi är ett forskningsområde inom barnsjukvården som är avancerat och begränsat, speciellt inom kvalitativ forskning, samt bara berör en liten del av populationen. Detta hade författarna med sig genom sin erfarenhet och bekräftades under studiens start. Författarna hade en viss förförståelse och en förväntan på vad resultatet skulle visa, vilket var att det skulle finnas specifika upplevelser som är förankrat till just dessa diagnoser. Resultaten som framkom visade dock på en mycket större generisk karaktär och inte några tydliga upplevelser som specifikt endast kan anknytas i de missbildningar som omfattas av barnkirurgin. Under arbetets gång har författarna varit medvetna om sin förförståelse och diskuterat mycket kring att inte låta den påverka arbetet, vilket bekräftas av fynden i resultatet. Studiens resultat är därmed troligen generaliserbar till andra medfödda missbildningar och eventuellt andra diagnoser inom barnsjukvården. Dock misstänker författarna att det skulle kunna finnas skillnader i upplevelserna för föräldrarna till barn med de inkluderade diagnoserna om en

intervjustudie utfördes i Sverige eller Norden, med tanke på hur vården är uppbyggd med centraliseringen.

## Resultatdiskussion

I resultatdiskussionen har författarna valt ut tre delar av resultatet och diskuterat det utifrån perspektivet KASAM för att sätta föräldrarnas upplevelser i ett sammanhang. Även ett familjecentrerat förhållningssätt beaktades i diskussionen eftersom enligt Riksföreningen för barnsjuksköterskor & Svensk Sjuksköterskeförening (2016) ska vårdpersonal bedriva vård med familjen i fokus.

Den samlade bilden av denna studies resultat visar på att stöd är ett komplext fenomen. Samtliga studier beskrev behovet av att ha olika typer av stöd från flera håll, oavsett om det var stöd från vårdpersonal, närstående eller övrig social omgivning. Hall et al. (2015) skriver att sjuksköterskor inte alltid är tränade i att kommunicera med föräldrar i emotionell stress och därmed inte har expertis i att möta deras psykosociala behov på bästa sätt. Resultatet i denna litteraturstudie visade på att det sociala stödet från övrig familj och vänner var en viktig faktor. Bristen på den typen av stöd ledde ofta till att familjerna kände sig ensamma och isolerade. Stöd är en viktig del av att kunna uppnå begriplighet, hanterbarhet och meningsfullhet vilket leder till styrkt KASAM och därmed ökar föräldrars förmåga att hantera situationen (Antonovsky, 1993). Enligt studien av Moe et al. (2017) så har det stor betydelse för föräldrarna att vårdpersonal kan agera som stöd och hjälpa föräldrarna hantera sin situation. Föräldrarna i det aktuella resultatet menade att inget stöd egentligen var viktigare än något annat så var stödet från andra föräldrar det som ledde till att de kände sig förstådda och mindre ensamma, vilket resulterade i att de kunde hantera sin situation bättre. I en studie av Häggman-Laitila & Pietilä (2009) beskriver föräldrar att de upplevde att det var viktigt att ha en bra stödgrupp där de kunde delta i diskussioner och ha en ömsesidig relation med övriga deltagare samt kunde få information från.

Resultatet visar att kommunikation som var rak, tydlig och i dialog var viktig för att minska stress och oro hos föräldrarna. En studie av Wigert et al. (2014) visade att aktiv kommunikation mellan

vårdpersonal och föräldrar var essentiell för deras möjlighet att hantera den svåra situation de befann sig i. Brist på god kommunikation ledde till en känsla av ensamhet och övergivenhet vilket gjorde den redan svåra situationen värre (Wigert et al., 2014). För att uppnå en god kommunikation i barnsjukvården behövs alla de fyra kärnbegreppen, *Respekt och Integritet, Information, Delaktighet* och *Samarbete*, inom familjecentrerad vård (IPFCC, 2016). Denna studies resultat visar att god kommunikation och regelbundna uppdateringar om barnets tillstånd från vårdpersonalen var av stor vikt för föräldrarna, även om det inte fanns någon ny information att tillgå. Vilket understöds av en studie av Govindaswamy et al. (2019) som beskriver att tydlig och ärlig information var viktigast för föräldrarna i mötet med vårdpersonal. Resultatet i denna litteraturstudie visade att när kommunikationen mellan det lokala sjukhuset och specialistsjukhuset inte fungerade väl påverkade det familjens vårdssituation och gjorde att föräldrarna upplevde minskad trygghet och delaktighet.

Vårdpersonal som arbetar med barn och deras familj har ett ansvar att i vården möjliggöra för optimal delaktighet i omvårdnadsarbete samt övrig kontakt med vården (Riksföreningen för barnsjuksköterskor & Svensk Sjuksköterskeförening, 2016). I en studie av Aydon et al. (2018) framkom det att vårdpersonalen var en viktig faktor i hur delaktigheten för föräldrarna fungerade. Delaktigheten som beskrevs förändrades över tid. Vilket även framkom i denna studies resultat. I början upplevde föräldrarna att det var skönt att vårdpersonalen tog huvudansvaret för barnet och instruerade föräldrarna i hur, vad och när de skulle utföra olika uppgifter. Desto äldre barnet blev ju mer upplevde föräldrarna sig som experter på sitt eget barn och det var viktigt för dem att vårdpersonalen förstod det och lyssnade på dem. Dock framkom det även i resultatet att föräldrarna inte alltid kände sig lyssnade på och fick vara delaktiga i den grad de önskade. Detta kunde leda till att föräldrarna inte upplevde att vårdpersonalen visade respekt och förståelse för deras situation. Vilket även understöds i studien av Reeder och Morris (2020) där föräldrarna upplevde att de ibland litade för mycket på vårdpersonalen och inte värderade sina egna kunskaper, åsikter och reflektioner lika högt vilket påverkade deras medverkan i barnets vård. Delaktighet i barnets vård utgjorde en viktig del i att föräldrarna kunde känna meningsfullhet och därigenom få en styrkt KASAM.

## **Konklusion och implikationer**

Studiens resultat visar på att föräldrarna upplevde att få ett barn med en medfödd missbildning ändrade hela deras livssituation, vilket påverkade dess begriplighet, hanterbarhet och meningsfullhet. Föräldrarna hade ett behov av att känna sig delaktiga och få individanpassat stöd från både vården och social omgivningen, både under sjukhusvistelsen men även efter utskrivning. Fungerande kommunikation med alla vårdaktörer var oerhört viktig. Föräldrar till barn med dessa missbildningar är väldigt få med tanke på hur ovanliga de är vilket ofta ledde till en upplevelse av ensamhet. Det visade sig att trots att de undersökta missbildningarna är så olika så hade föräldrarna relativt lika upplevelser och känslor. Vid granskning av resultatet i studien ur ett familjecentrerat perspektiv så indikerar studien att det finns brister som behöver lyftas och åtgärdas för att utveckla vården. Studien kan användas genom att sjuksköterskor som jobbar med de berörda patienterna och deras familjer kan bli uppmärksamma på vad som var viktigt för dessa föräldrar. Det är inte tillräckligt med denna studie för att kunna göra några större slutsatser men visar dock att det finns ett stort behov av mer forskning kring dessa missbildningar ur ett föräldraperspektiv. Denna studie kan också användas som en grund för att skapa ett intresse för att forska vidare kring dessa diagnoser ur ett familjeperspektiv genom att inhämta nyare och djupare information från föräldrar.

## Referenser

- \*Abbasiasl, H., Hakim, A., & Zarea, K. (2021). Explaining the Care Experiences of Mothers of Children with Hirschsprung's Disease: A Qualitative Study. *Global pediatric health*, 8, 2333794X211015520. <https://doi.org/10.1177/2333794X211015520>
- Agerskov, H., Thiesson, H. C., & Pedersen, B. D. (2021). Siblings of children with chronic kidney disease: A qualitative study of everyday life experiences. *Journal of renal care*, 47(4), 242–249. <https://doi.org/10.1111/jorc.12389>
- Amiel, J., & Lyonnet, S. (2001). Hirschsprung disease, associated syndromes, and genetics: a review. *Journal of medical genetics*, 38(11), 729–739. <https://doi.org/10.1136/jmg.38.11.729>
- Antonovsky, A. (1993). The structure and properties of the sense of coherence scale. *Social Science & Medicine*. 23(6), 725-733. [https://doi.org/10.1016/0277-9536\(93\)90033-Z](https://doi.org/10.1016/0277-9536(93)90033-Z)
- Aydon, L., Hauck, Y., Murdoch, J., Siu, D., & Sharp, M. (2018). Transition from hospital to home: Parents' perception of their preparation and readiness for discharge with their preterm infant. *Journal of clinical nursing*, 27(1-2), 269–277. <https://doi.org/10.1111/jocn.13883>
- Broberg, M. (2015). Familjens liv och villkor. I I. Hallström & T. Lindeberg (Red.), *Pediatrik omvårdnad* (upplaga 2, s. 48-51). Liber. ISBN: 978-91-47-11509-9.
- Centrum för forsknings- & bioetik. (25 november 2021). *Etik i omvårdnad*. <https://www.crb.uu.se/forskning/vard/>
- Christofferson, R., Läckergren, G. & Stenberg, A. (Red). (2015). *Grottes barnkirurgi och barnurologi* (upplaga 1). Studentlitteratur. ISBN: 978-91-44-07151-0.
- Drevenhorn, A. (2021). Personcentrerat förhållningssätt inom hälsofrämjande arbete i primärvården. I: A-K. Edberg, A. Ehrenberg, H. Wijk och J Öhlén (Red.), *Omvårdnad på avancerad nivå: kärnkompetenser inom sjuksköterskans specialistområden* (upplaga 2 s.111-115). Studentlitteratur. ISBN: 978-91-44-13624-0
- Engstrand Lilja, H & Gustafson, E. (2015). Esofagus. I R. Christofferson, G. Läckergren & A. Stenberg (Red.), *Grottes barnkirurgi och barnurologi* (upplaga 1 s. 55-59). Studentlitteratur. ISBN: 978-91-44-07151-0

- \*Fleck, P., Kenner, C., Board, R., & Mott, S. (2017). Mother's Lived Experience During Repair of Long-Gap Esophageal Atresia: A Phenomenological Inquiry. *Advances in neonatal care : official journal of the National Association of Neonatal Nurses*, 17(4), 313–323.
- Forsberg, C. & Wengström, Y. (2013). *Att göra systematiska litteraturstudier*. Stockholm, Natur och kultur.
- Frenckner, B. (2015). Diafragmabråck. I R. Christofferson, G. Läckergren & A. Stenberg (Red.), *Grottes barnkirurgi och barnurologi* (upplaga 1 s. 69-74). Studentlitteratur. ISBN: 978-91-44-07151-0
- Govindaswamy, P., Laing, S., Waters, D., Walker, K., Spence, K., & Badawi, N. (2019). Needs and stressors of parents of term and near-term infants in the NICU: A systematic review with best practice guidelines. *Early Human Development*, 139, N.PAG. <https://doi-org.ludwig.lub.lu.se/10.1016/j.earlhumdev.2019.104839>
- Hall E. O. C. (2005). Being in an alien world: Danish parents`lived experiences when a newborn or small child is critically ill. *Scandinavian Journal of Caring Sciences*, 19(3), 179-185. <https://doi-org.ludwig.lub.lu.se/10.1111/j.1471-6712.2005.00352.x>
- Hall, S. L., Cross, J., Selix, N. W., Patterson, C., Segre, L., Chuffo-Siewert, R., Geller, P. A., & Martin, M. L. (2015). Recommendations for enhancing psychosocial support of NICU parents through staff education and support. *Journal of perinatology : official journal of the California Perinatal Association*, 35 Suppl 1(Suppl 1), S29–S36. <https://doi.org/10.1038/jp.2015.147>
- Hallström, I., (2015) Barn i hälso- och sjukvården I.I Hallström & T. Lindeberg (Red.) *Pediatrik omvårdnad* (upplaga 2, s. 24-25). Liber. ISBN: 978-91-47-11509-9.
- \*Hinton, L., Locock, L., Long, A. M., & Knight, M. (2018). What can make things better for parents when babies need abdominal surgery in their first year of life? A qualitative interview study in the UK. *BMJ open*, 8(6), e020921. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2017-020921>
- Häggman-Laitila A, & Pietilä A. (2009). Preventive psychosocietal support groups: parents' criteria for good quality. *Scandinavian Journal of Caring Sciences*, 23(2), 211–221. <https://doi-org.ludwig.lub.lu.se/10.1111/j.1471-6712.2008.00607>
- Höglund, A T. (7 december 2021). *Sjukvården behöver det etiska perspektivet*. Centrum för forsknings- & bioetik. <https://etikbloggen.crb.uu.se/tag/vardetik/>

Institute for Patient- and Family-Centred Care. (2016). *Advancing the practice of patient- and family-centered care in primary care and other ambulatory settings. How to get started...*  
<https://www.ipfcc.org/resources/GettingStarted-AmbulatoryCare.pdf>

Karolinska Institutet (7 November 2022) *Systematisk Litteraturstudie som examensarbete*  
<https://kib.ki.se/soka-vardera/systematiska-oversikter/systematisk-litteraturoversikt-som-examensarbete>

\*Kassa, A. M., Engstrand Lilja, H., & Engvall, G. (2019). From crisis to self-confidence and adaptation; Experiences of being a parent of a child with VACTERL association - A complex congenital malformation. *PloS one*, 14(4), e0215751.  
<https://doi.org/10.1371/journal.pone.0215751>

Kjellström, S. (2020) Forskningsetik I. M. Henricson (Red.) *Vetenskaplig teroi och metod - från ide till ecamination inom omvårdnad* (upplaga 2, s. 57-77) Studentlitteratur. ISBN: 978-91-44-11328-9

\*Klacksell, L., Karpe, B., & Ygge, BM. (2007). Föräldrars upplevelser av daglig dilatation på deras barn födda med esofagusatresi. *Vård i Norden*, 27(4):52-55.  
[doi:10.1177/010740830702700411](https://doi.org/10.1177/010740830702700411)

Kornburger, C., Gibson, C., Sadowski, S., Maletta, K. & Klingbeil, C. (2013). Using “Teach-Back” to Promote a Safe Transition From Hospital to Home: An Evidence-Based Approach to Improving the Discharge Process. *Journal of Pediatric Nursing*, 28(3), 282–291. <https://doi-org.ludwig.lub.lu.se/10.1016/j.pedn.2012.10.007>

Lee, J. E., Towbin, R. B., Aria, D. J., Schaefer, C. M., & Towbin, A. J. (2021). Congenital Diaphragmatic Hernia. *Applied Radiology*, 50, 8–10. <https://web-p-ebsohost-com.ludwig.lub.lu.se/ehost/detail/detail?vid=3&sid=6379ad34-2cd6-4fe7-b64e-142e2a1066e9%40redis&bdata=JkF1dGhUeXBIPWlwLHVpZCZzaXRIPWVob3N0LWxpdmU%3d#AN=153961399&db=ccm>

Moe, K., Valen-Sendstad Skisland, A., & Söderhamn, U. (2017). Encountering parents of a sick newborn child: When nurses encounter parents with a sick newborn child, it is vital that they see them as individuals and establish a relationship based on empathy. *Norwegian Journal of Clinical Nursing / Sykepleien Forskning*, 1–11. <https://web-p-ebsohost-com.ludwig.lub.lu.se/ehost/detail/detail?vid=4&sid=5e0499a1-323f-4f51-b09a->



d056abb7d141%40redis&bdata=JkF1dGhUeXBIPWlwLHVpZCZzaXRIPWVob3N0LWxpd  
mU%3d#AN=124459887&db=ccm

Nisell, M., Ojmyr-Joelsson, M., Frenckner, B., Rydelius, P. A., & Christensson, K. (2003). How a family is affected when a child is born with anorectal malformation. Interviews with three patients and their parents. *Journal of pediatric nursing*, 18(6), 423–432.  
[https://doi.org/10.1016/s0882-5963\(03\)00029-0](https://doi.org/10.1016/s0882-5963(03)00029-0)

NOBAB (u.å.) Nordiskt nätverk för Barn och ungas rätt och Behov inom hälso- och sjukvård.  
[https://www.nobab.se/files/ugd/24f0dd\\_6c523519ffc34ba5afea9292c0ee6f08.pdf](https://www.nobab.se/files/ugd/24f0dd_6c523519ffc34ba5afea9292c0ee6f08.pdf)

Omling, E. (2019). Pediatric surgical care in Sweden. Studies on incidence, outcome and access. *Lund University, Faculty of Medicine Doctoral Dissertation Series*, 2019:21(21).  
<https://lup.lub.lu.se/record/46346794-5f93-42d5-ab47-a7e161d94cfb>

\*Petit-Steeghs, V., Pittens, C. A. C. M., Barnhoorn, M. J. M., & Broerse, J. E. W. (2019). "The challenge of managing insecurities": Parents' experiences with the care for their child with congenital diaphragmatic hernia. *Journal for specialists in pediatric nursing : JSPN*, 24(3), e12247. <https://doi.org/10.1111/jspn.12247>

Polit, D. F., & Beck, C. T. (2020). *Nursing Research: Generating and Assessing Evidence for Nursing Practice* (11 uppl.). Wolters Kluwer.

Radell, P. & Bredlöv, B. (2015). Det akut sjuka barnet. I. I. Hallström & T. Lindeberg (Red.), *Pediatrik omvårdnad* (upplaga 2. S. 177). Liber. ISBN: 978-91-47-11509-9

Reeder, J., & Morris, J. (2021). Becoming an empowered parent. How do parents successfully take up their role as a collaborative partner in their child's specialist care?. *Journal of child health care : for professionals working with children in the hospital and community*, 25(1), 110–125. <https://doi.org/10.1177/1367493520910832>

Riksföreningen för Barnsjuksköterskor & Svensk Sjuksköterskeförening. (2016). *Kompetensbeskrivning: För legitimerad sjuksköterska med specialistsjuksköterskeexamen med inriktning mot hälso- och sjukvård för barn och ungdomar* (Broschyr). Stockholm  
<https://www.swenurse.se/download/18.9f73344170c00306231740/1584023319857/kompetensbeskrivning%20legitimerad%20barnsjukskoterska.pdf>

- SBU. (2013). Utvärdering av metoden i hälso- och sjukvården - en handbok. Statens beredning för medicinsk utredning.  
<https://www.sbu.se/contentassets/d12fd955318f4feab3709d7ebcc9a72b/sbushandbok.pdf>
- SBU. (2022). Bedömning av studier med kvalitativ metodik.  
[https://www.sbu.se/globalassets/ebm/bedomning\\_studier\\_kvalitativ\\_metodik.pdf](https://www.sbu.se/globalassets/ebm/bedomning_studier_kvalitativ_metodik.pdf)
- Socialstyrelsen. (2016). VACTERL-associationen (vertebral defects, anal atresia, cardiac defects, tracheo-esophageal fistula, renal anomalies, limb abnormalities)  
<https://www.socialstyrelsen.se/kunskapsstod-och-regler/omraden/sallsynta-halsotillstand/vacterl-associationen/>
- Socialstyrelsen. (2017). *Viss avancerad barn- och ungdomskirurgi som rikssjukvård*.  
<https://www.ilco.nu/media/240ps33m/socialstyrelsen-rikssjukvard-medfodda-missbildningar.pdf>
- Socialstyrelsen. (26 April 2021a). *Statistik om graviditeter, förlossningar och nyfödda barn 2020*.  
<https://www.socialstyrelsen.se/globalassets/sharepoint-dokument/artikelkatalog/statistik/2021-12-7651.pdf>
- Socialstyrelsen. (10 maj 2021b). *Årlig uppföljning av nationell högspecialiserad vård*.  
<https://www.socialstyrelsen.se/arl原因-uppfoljning-nationell-hogspecialiserad-varld/>
- Socialstyrelsen. (10 mars 2022). *Nationell högspecialiserad vård*.  
<https://www.socialstyrelsen.se/kunskapsstod-och-regler/regler-och-riktlinjer/nationell-hogspecialiserad-varld/>
- Stenström, P. & Arnbjörnsson, E. (2015). Anorektala missbildningar. I R. Christofferson, G. Läckergren & A. Stenberg (Red.), *Grottes barnkirurgi och barnurologi* (upplaga 1 s. 107-111). Studentlitteratur. ISBN: 978-91-44-07151-0
- Stern, J. A., Jones, J. D., Shaver, P. R., Fraley, R. C., Gross, J. T., & Cassidy, J. (2018). Developmental Processes Across the First Two Years of Parenthood: Stability and Change in Adult Attachment Style. *Developmental Psychology*, 54(5), 975–988. <https://web-s-ebscohost-com.ludwig.lub.lu.se/ehost/pdfviewer/pdfviewer?vid=16&sid=0094a2c3-6ede-44d5-9852-b589d8bd6bb7%40redis>

- \*Stewart, A., Smith, C. H., Govender, R., Eaton, S., De Coppi, P., & Wray, J. (2022). Parents' experiences of feeding children born with oesophageal atresia/tracheo-oesophageal fistula. *Journal of pediatric surgery*, 57(12), 792–799. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2022.08.013>
- Svensk sjuksköterskeförening (2015). *Familjefokuserad omvårdnad* (Broschyr)  
<https://swenurse.se/download/18.21c1e38d175977459261553d/1605102568110/Familjefokuserad%20omvårdnad.pdf>
- Svenska registret för avancerad barn- och ungdomskirurgi. (2019). *Årsrapport 2019*.  
<https://registercentrum.blob.core.windows.net/sweaps/r/SWEAPS-arsrapport-2019-HyeILBReNO.pdf>
- Tofft, L. (2021) Anorectal malformations - surgical aspects and transition. *Lund university, Faculty of Medicine Doctoral Dissertation Series*, 2021:130.  
[https://lucris.lub.lu.se/ws/portalfiles/portal/109166199/Louise\\_Tofft\\_WEBB.pdf](https://lucris.lub.lu.se/ws/portalfiles/portal/109166199/Louise_Tofft_WEBB.pdf)
- Vårdanalys (2013). *Centralisering med patienten i centrum*. (Rapport 2013:3).  
<https://www.varदानalys.se/wp-content/uploads/2013/05/Rapport-2013-3-Centralisering-med-patienten-i-centrum.pdf> ISBN: 978-91-87213-10-6
- \*Wallace, V., Honkalampi, K., & Korhonen, M. (2022). Fear, isolation and the importance of support: A qualitative study of parents' experiences of feeding a child born with esophageal atresia. *Journal of pediatric nursing*, 67, e9–e15. <https://doi.org/10.1016/j.pedn.2022.10.011>
- Wigert, H., Dellenmark Blom, M., & Bry, K. (2014). Parents' experiences of communication with neonatal intensive-care unit staff: an interview study. *BMC pediatrics*, 14, 304.  
<https://doi.org/10.1186/s12887-014-0304-5>
- Willman A, Stoltz P, Bahtsevani C, (2011) *Evidensbaserad omvårdnad - En bro mellan forskning och klinisk verksamhet*. Lund, Studentlitteratur.
- \*Witt, S., Bullinger, M., Quitmann, J. H., Sommer, R., Dellenmark, B. M., Jönsson, L., Gatzinsky, V., Abrahamsson, K., Flieder, S., Dingemann, J., Ure, B., Dingemann, C., & Chaplin, J. E. (2019). Health-related quality of life experiences in children and adolescents born with esophageal atresia: A Swedish–German focus group study. *Child: Care, Health & Development*, 45(1), 79–88. <https://doi-org.ludwig.lub.lu.se/10.1111/cch.12619>

\*Wigander, H., Öjmyr-Joelsson, M., Frenckner, B., Wester, T., & Nisell, M. (2018). Impact of Low Anorectal Malformation on Parenting Stress: A Mixed-Method Study. *Journal of pediatric nursing*, 42, e45–e51. <https://doi.org/10.1016/j.pedn.2018.05.003>

World Medical Association. (9 juli 2018). WMA declaration of Helsinki-ethical principles for medical research involving human subjects. World Medical Association. <https://www.wma.net/policies-post/wma-declaration-of-helsinki-ethical-principles-for-medical-research-involving-human-subjects/>

Ygge, B. (2015) Barn på sjukhus. I. I. Hallström & T. Lindeberg (Red.), *Pediatrisk omvårdnad* (upplaga 2. s.117-128). Författarna och Liber. ISBN: 978-91-47-11509-

## Bilaga 1 (1)

### Sökschema

Tabell 1: Sökning i Pubmed

| Sökning | Sökord  | Antal träffar | Lästa abstrakt | Lästa i fulltext | Granskade | Inkluderade i resultat |
|---------|---|---------------|----------------|------------------|-----------|------------------------|
| # 1     | Pediatric surgery   | 155022        |                |                  |           |                        |
| # 2     | Parents experience  | 55076         |                |                  |           |                        |
| # 3     | Child OR Infant OR newborn  | 3671266       |                |                  |           |                        |
| # 4     | Abnormalities, congenital OR Congenital malformations OR Hirschprung disease OR Anorectal malformations OR Esophageal atresia OR Diaphragmatic hernia | 655081        |                |                  |           |                        |
| # 5     | #1 + #2 + #3 + #4   | 210           |                |                  |           |                        |
| # 6     | #1 + #2 + #3 + #4 NOT hand NOT lip  | 190           | 20             | 3                | 2         | 2                      |

Sökdatum: 9/11 - 22

Tabell 2: Sökning i Cinahl

| Sökning | Sökord  | Antal träffar | Lästa abstrakts | Lästa i fulltext | Granskade | Inkluderade i resultat |
|---------|---|---------------|-----------------|------------------|-----------|------------------------|
| # 1     | Parents experience  | 24398         |                 |                  |           |                        |
| # 2     | Child OR infant OR newborn  | 616353        |                 |                  |           |                        |
| # 3     | Congenital abnormalities OR congenital malformation OR Hirschsprung disease OR Anorectal malformation OR Esophageal atresia OR Diaphragmatic hernia | 25958         |                 |                  |           |                        |
| # 4     | #1 + #2 + #3  | 54            | 7               | 1                | 1         | 1                      |

Sökdatum: 9/11 - 22

## Bilaga 1 (2)

Tabell 3 Sökning i Cinahl

| Sökning | Sökord  | Antal träffar | Lästa abstrakts | Lästa i fulltext | Granskade | Inkluderade i resultat |
|---------|---|---------------|-----------------|------------------|-----------|------------------------|
| # 1     | Parents experience  | 24415         |                 |                  |           |                        |
| # 2     | Child OR infant OR newborn  | 990951        |                 |                  |           |                        |
| # 3     | Congenital abnormalites OR congenital malformations OR Hirschsprung disease OR anorectal malformation OR esophageal atresia OR Diaphragmatic hernia | 25997         |                 |                  |           |                        |
| # 4     | #1 + #2 + #3  | 119           | 9               | 2                | 1         | 1                      |

Sökdatum: 13/11- 22

Tabell 4: Sökning i Medline

| Sökning | Sökord  | Antal träffar | Lästa abstrakts | Lästa i fulltext | Granskade | Inkluderade i resultat |
|---------|---|---------------|-----------------|------------------|-----------|------------------------|
| # 1     | Pediatric surgery   | 236249        |                 |                  |           |                        |
| # 2     | Parents experience  | 33511         |                 |                  |           |                        |
| # 3     | Child OR newborn OR infant  | 3248296       |                 |                  |           |                        |
| # 4     | Congenital abnormalites OR congenital malformations OR Hirschsprung disease OR anorectal malformation OR esophageal atresia OR Diaphragmatic hernia | 178497        |                 |                  |           |                        |
| # 5     | #1 + #2 + #3 + #4   | 77            | 11              | 4                | 2         | 1                      |

Sökdatum: 9/11-22

## Bilaga 1 (3)

Tabell 5: Sökning i Pubmed

| Sökning | Sökord                     | Antal träffar | Lästa abstrakts | Lästa i fulltext | Granskade | Inkluderade i resultat |
|---------|----------------------------|---------------|-----------------|------------------|-----------|------------------------|
| # 1     | Hirschprung disease        | 6872          |                 |                  |           |                        |
| # 2     | Child OR newborn OR infant | 3673479       |                 |                  |           |                        |
| # 3     | Parents experience         | 44118         |                 |                  |           |                        |
| # 4     | #1 + #2 + #3               | 27            | 5               | 2                | 2         | 2                      |

Sökdatum: 14/11- 22

Tabell 6: Sökning i Pubmed

| Sökning | Sökord                     | Antal träffar | Lästa abstrakts | Lästa i fulltext | Granskade | Inkluderade i resultat |
|---------|----------------------------|---------------|-----------------|------------------|-----------|------------------------|
| # 1     | Child OR infant OR newborn | 3673479       |                 |                  |           |                        |
| # 2     | Parents experience         | 44118         |                 |                  |           |                        |
| # 3     | Esophageal atresia         | 5595          |                 |                  |           |                        |
| # 4     | #1 + #2 + #3               | 27            | 3               | 2                | 2         | 2                      |

Sökdatum: 14/11-22

## Bilaga 2 (1)

### Artikelmatris

| Författare, År, Land                | Syfte   | Design  | Deltagare (bortfall)               | Resultat   | Kvalitet/kommentar  |
|-------------------------------------|---|---|------------------------------------|--|---|
| Wigander et.al<br>2018<br>Sverige   | To investigate stress among parents of children born with low anorectal malformation.                             | Studien har både kvantitativ och kvalitativ metod. Ett kvantitativt frågeformulär skickades ut där respondenterna tillfrågades om de kunde tänka sig att delta i kvalitativa intervjuer för att få en djupare förståelse. Semistrukturerade intervjuer utfördes. De var sedan inspelade och transkriberade. Innehållsanalys användes. | Kvalitativ: 9 föräldrar deltog (1) | Tre teman framkom: ”Kommunikation mellan föräldrar”, Förväntningar på föräldraskapet” och “Utmaningar i föräldraskapet”. | Antal procent i granskningsprotokoll: 77<br>Metoden är tydligt beskrivet.<br>Informationen kring hur forskarna har hanterat sin förförståelse och reflexivitet är inte beskrivet. |
| Klacksell et. al<br>2007<br>Sverige | Att undersöka föräldrars upplevelser av att deras barn med esofagusatresi har en kvarliggande dilatationsballong. | Semistrukturerade intervjuer med en frågeguide utfördes. Intervjuerna spelades in och transkriberades. Innehållsanalys användes.  | 11 föräldrar deltog. (3)           | Tre teman framkom: Kommunikation /delaktighet, Tolerans och Välbefinnande.   | Antal procent i granskningsprotokoll: 69<br>Informationen kring forskarnas kompetens och bakgrund var begränsad.  |



## Bilaga 2 (2)

|   |   |   |                                     |  |   |
|---|---|---|-------------------------------------|--|---|
| <p>From crisis to self-confidence and adaption: Experiences of being a parent of a child with VACTERL association - A complex congenital malformation</p> <p>Kassa et. al.</p> <p>2019</p> <p>Sverige</p> | <p>To describe the experience of being a parent of a child with VACTERL association.</p>    | <p>Semistrukturerade intervjuer med öppna frågor genomfördes. Intervjuerna spelades in och transkriberades. Kvalitativ dataanalys användes.</p> | <p>19 föräldrar deltog. (0)</p>     | <p>Två huvudkategorier framkom: "Att bli och att vara förälder till ett barn med en komplex medfödd missbildning" och "Erfarenheter av hälso- och sjukvård i samband med behandling av barnet"</p> | <p>Antal procent i granskningsprotokoll: 92<br/>Metod och urval är tydligt beskrivet. Forskarnas kompetens och bakgrund var väl beskriven, lika så etiska beaktanden.</p> |
| <p>Explaining the care experiences of mothers of children with Hirschsprungs disease: a kvalitativ study</p> <p>Abbasisasl et. al.</p> <p>2021</p> <p>Iran</p>  | <p>To understand the care experience of parents of children with Hirschsprungs disease.</p> | <p>Individuella intervjuer utfördes tills datamättnad nåddes. Intervjuerna spelades in och skrevs ner och analyserades via innehållsanalys.</p> | <p>Totalt 12 mödrar deltog. (0)</p> | <p>Tre huvudteman framkom: "Erosionsvård", "Socioekonomiska utmaningar" och "Förlika sig med situationen"</p>  | <p>Antal procent i granskningsprotokoll: 84<br/>Urvalet är otydligt beskrivet. Etiska beaktanden är tydligt beskrivet.</p>  |

## Bilaga 2 (3)

|   |   |   |  |   |   |
|---|---|---|--|---|---|
| <p>Mothers Lived experience during repair of Long-Gap Esophageal Atresia: A Phenomenological inquiry</p> <p>Fleck et. al</p> <p>2017</p> <p>Boston, USA</p>           | <p>To understand the meaning of the lived experience of being a mother of an infant with LGEA.</p>  | <p>Tre intervjuer utfördes med mödrarna. Den första var samma för alla med öppna frågor, de två följande var individualiserade. De spelades in och transkriberades, vilka sedan analyserades genom fundamentala existentiella teman.</p>  | <p>3 föräldrar deltog. (0)</p>         | <p>Fyra teman framkom: "The many phases", "The long and winding road", "A new me, my purpose" och "Our new community".</p>  | <p>Antal procent i granskningsprotokoll: 69<br/>Litet urval och informationen kring forskarnas kompetens och bakgrund var inte beskrivet men den är etiskt godkänd. Metoden är tydligt beskriven.</p>   |
| <p>What can make things better for parents when babies need abdominal surgery in their first year of life?</p> <p>Hinton et. al</p> <p>2018</p> <p>Storbritannien</p> | <p>Explore parents' experience and perspectives of having a baby who needs early abdominal surgery; identify the questions and problems that matter to parents during and after their pregnancy and infant's surgery and identify the long-term impact on parents and families.</p> | <p>Parvisa eller individuella intervjuer. Intervjuerna hölls i två delar. Först erbjöds deltagarna en möjlighet att ostrukturerat berätta utefter en öppen fråga. Detta följdes sedan upp med semistrukturerade frågor. Intervjuerna fortsatte till tematisk mättnad uppnåts. Intervjuerna spelades in med ljud och vissa fall video. Sedan transkriberades dem. Tematisk analys genomfördes.</p> | <p>Totalt 42 föräldrar deltog. (2)</p> | <p>Sex teman framkom: "Kommunikation", "Hantera information och informationsöverbelastning", "Uppmuntra föräldrar att hitta andra", "Hjälp med att hitta en roll", "Förbereda för att åka hem" och "Tillgång till vården efter"</p> | <p>Antal procent i granskningsprotokoll: 84<br/>Stort urval. Metoden är grundligt beskriven och väl genomförd. Informationen kring forskarnas kompetens och bakgrund var något begränsad men etiskt godkänd. I resultatet är det tydligt beskrivet i varje citat vad barnet till den föräldern har för diagnos.</p> |

## Bilaga 2 (4)

|  |   |  |   |  |  |
|--|---|--|---|--|--|
| <p>Fear isolation and the importance of support - A qualitative study of parents experiences of feeding a child born with esophageal atresia</p> <p>Wallace et. al<br/>2022<br/>Storbritannien</p> | <p>To further investigate the parents' experience of feeding a child born with esophageal atresia.</p>                | <p>Ett frågeformulär gjordes online med både kvalitativa och kvantitativa frågor. De kvalitativa frågorna var öppna frågor och deltagarna uppmanades att skriva om sin erfarenhet utan maximalt antal ord. Tematisk analys utfördes.</p> | <p>176 föräldrar som fyllde i frågeformuläret inkluderades i studien. (39 föräldrar som fyllde i frågeformuläret exkluderades).</p> | <p>Endast de kvalitativa resultaten redovisas i denna studie. Tre teman framkom: "Ångest, trauma och förlust", "Isolerad och utan stöd" samt "Stöd".</p>   | <p>Antal procent i granskningsprotokoll: 92<br/>Stort urval och både metoden och forskarnas kompetens och bakgrund var väl beskriven.</p>  |
| <p>How a family is affected when a child is born with anorectal malformation. Interviews with three patients and their parents.</p> <p>Nisell et. al.<br/>2003<br/>Sverige</p>                     | <p>To illuminate the experience and psychosocial situation of 3 patients with imperforate anus and their parents.</p> | <p>Individuella intervjuer med kombinerat öppna och strukturerade frågor som spelades in och transkriberades. En analysmetod liknande innehållsanalys som kallas "editing analysis" eller "editing style" användes.</p>                  | <p>Totalt 3 patienter och 5 föräldrar deltog. (0)</p>   | <p>Fyra kategorier framkom: "Fysiska effekter av missbildningen", "Känslomässiga effekter av missbildningen", "Sociala effekter av missbildningen" samt "Missbildningens effekt på familjen". Alla kategorierna hänger samman och påverkar varandra.</p> | <p>Antal procent i granskningsprotokoll: 77<br/>Litet urval och informationen kring forskarnas kompetens och bakgrund var något begränsad men etiskt godkänd. I resultatet är det tydligt vad som är föräldrarnas upplevelser.</p> |

## Bilaga 2 (5)

|  |   |   |   |  |   |
|--|---|---|---|--|---|
| <p>Parents' experiences of feeding children born with oesophageal atresia/tracheo-oesophageal fistula</p> <p>Stewart et.al</p> <p>2022</p> <p>Storbritanien</p>                                      | <p>To explore parents' lived experiences of feeding in children born with oesophageal atresia/tracheo-oesophageal fistula.</p>              | <p>En facebook-grupp startades i samarbete med en diagnosförening. Dit bjöds föräldrar in som föll inom inklusionskriterierna. Frågor publicerades en i taget och föräldrarna fick svara. Totalt 12 frågor. Det gick att delta via email. Tematisk analys utfördes.</p>   | <p>127 föräldrar deltog . (0)</p>                                 | <p>Sex nyckelteman framkom: "Mata mitt barn är skrämmande", "Matning är en traumatisk erfarenhet", "Matning är ensamt och fyllt med osäkerhet", "Matningsproble m leder till svårigheter att äta utanför hemmet", "Matnings- associerade känslor" och "Utvecklande av coping- strategier".</p> | <p>Antal procent i gransknings-protokoll: 84<br/>Stort urval. Metoden är tydligt beskriven. Etiska avväganden är inte beskrivet men noterat och studien är etiskt godkänd.</p>                                  |
| <p>"The challenge of managing insecurities": Parents experiences with the care for their child with congenital diaphragmatic hernia</p> <p>Petit-Steeghs et.al.</p> <p>2019</p> <p>Nederländerna</p> | <p>To obtain insights into parental experience to improve the future quality of care for children with congenital diaphragmatic hernia.</p> | <p>Webbloggar som föräldrar till barn med CDH hade skrivit analyserades. För att fördjupa analysen följdes det upp med online fokusgrupper. I varje grupp postades frågor till föräldrarna. Kategorierna som framkom i webbloggarna användes genom att manuellt analysera resultatet från fokusgrupperna via deduktiv kodning</p> | <p>17 webbl oggar och 29 föräld rar delat på 3 fokus grupper.</p> | <p>Sek kategorier framkom: "Parental satisfaction with care", "Parents' biopsychologica l outcome", "Parents' psychological resources", "Social context", "Perceptions of CDH" och "External exacerbating variables".</p>  | <p>Antal procent i gransknings-protokoll: 77<br/>Metoden är relativt tydligt beskrivet. Forskarnas bakgrund och förförståelse är inte beskrivet men de har en bra reflexivitet. De skriver tydligt om etik.</p> |

Mall för kvalitetsgranskning

# Bedömning av studier med kvalitativ metodik

UPPDATERAD 2022-05-11

Författare: \_\_\_\_\_ År: \_\_\_\_\_

Granskare: \_\_\_\_\_

### Sammanvägd bedömning av metodologiska brister:

Obetydliga eller mindre

Måttliga

Stora brister, studien ingår inte i syntesen

Kommentarer:

## Bilaga 3 (2)

### 1. Överensstämmelse mellan filosofisk hållning/teori och urval och metodik i studien<sup>1</sup>

Vilken teori eller filosofisk hållning utgick författarna från?

|  |                          |                          |                          |
|--|--------------------------|--------------------------|--------------------------|
| Hänger syfte och fråga ihop med teori/filosofisk hållning? | Ja                       | Nej                      | Oklart                   |
|  | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |

Kommentarer:

### 2. Deltagare

Hur gjordes urvalet?

|  |                          |                          |                          |
|--|--------------------------|--------------------------|--------------------------|
| <b>Stödfrågor för bedömning av brister i urvalsförandet:</b>     | Ja                       | Nej                      | Oklart                   |
| Är urvalet lämpligt för att besvara frågan?                      | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Är rekryteringsmetoden lämpligt vald och genomförd?              | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Finns det allvarliga brister som kan påverka tillförlitligheten? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |

Kommentarer:

### 3. Datainsamling

Vilka metoder användes för datainsamling?

|  |                          |                          |                          |
|--|--------------------------|--------------------------|--------------------------|
| Finns det allvarliga brister i datainsamlingen som kan påverka tillförlitligheten? | Ja                       | Nej                      | Oklart                   |
|  | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |

Kommentarer:

## Bilaga 3 (3)

### 4. Analys

Vilka metoder användes för analys?

| <b>Stödfrågor för bedömning av brister i analyssteget:</b>                 | <b>Ja</b>                | <b>Nej</b>               | <b>Oklart</b>            |
|--|--------------------------|--------------------------|--------------------------|
| Är vald analysmetod lämplig och genomförd på ett lämpligt sätt?            | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Var forskarna reflexiva vid tolkning av data?                              | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Validerades tolkningarna?  | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Finns det allvariga brister i analysen som kan påverka tillförlitligheten? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |

Kommentarer:

### 5. Forskaren

Vilken bakgrund och kompetens hade forskarna?

| <b>Stödfrågor för bedömning av brister:</b>  | <b>Ja</b>                | <b>Nej</b>               | <b>Oklart</b>            |
|--|--------------------------|--------------------------|--------------------------|
| Har forskarna någon relation till studiedeltagarna som kan påverka datainsamlingen?            | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Har forskarna hanterat sin förförståelse på ett acceptabelt sätt?                              | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Var forskarna oberoende av finansiella eller andra förutsättningar som kunde påverka analysen? | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |
| Finns det allvariga brister som kan påverka tillförlitligheten?                                | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> | <input type="checkbox"/> |

Kommentarer: