

Utvalgsmetode i spørreundersøkelsen Tjenesten og MEg

ME er en sykdom som anslås å være betydelig underdiagnostisert (Jason et al., 1999, Jason et al., 2006b; Solomon and Reeves, 2004). Studier viser at utredning og diagnostisering kan ta lang tid (Owe et al, 2016; Bragee et al, 2020), noe som bekreftes av prosjektets foreløpige registerdataanalyser.

Forskningsrådsutlysningen **BEHOV-ME** påla søkere å bruke Canadakriteriene i aktuelle forskningsprosjekter. Diagnostisering med G93.3 har i Norge fram til i dag blitt gjort i henhold til både Canada og andre diagnosekriterier. Prosjektet forutsatte derfor at ME er underdiagnostisert med diagnosekode G93.3, og noen av de tilfellene som er kodet med G93.3 er ikke diagnostisert i henhold til Canadakriteriene. Vi forholder oss følgelig til en pasientgruppe uten klar utvalgsramme.

Prosjektets tilnærming til denne utfordringen var å bruke utvalgsmetoden Respondent-Driven Sampling (RDS), som er utformet tiltenkt bruk i denne typen populasjoner (Heckathorn, 1997, 2002). RDS er en metode for nettverksrekruttering der man bruker egne estimatorer og egen programvare (RDS Analyst). Når gitte forutsetninger er møtt kan metoden gi forventingsrette estimater for en populasjon, gjennom å vekte for både nettverksstørrelse og at folk har en tendens til å rekruttere andre som er lik seg selv («homofili»). Det er en viktig målsetning i RDS-studier at man får lange rekrutteringskjeder, slik at utvalget kan bli uavhengig av startpunktene. Dersom RDS-rekruttering er vellykket vil fordelingen av svar i undersøkelsen konvergere mot ekvilibrium etter noen rekrutteringsledd. RDS tillater også forskerne å følge rekrutteringskjedene med hensyn på å avdekke mulige opphopninger av respondenter med liknende kjennetegn.

Som ved bruk av annen utvalgsmetode kan man også i RDS kaste nettet vidt for å bedre sjansene for at alle undergrupper av målgruppen er med. Det vil si at man inkluderer deltakere utover målgruppen, og deretter sorterer deltakerne i etterkant, i henholdt til forhåndsbestemte case-definisjonskriterier. I Tjenesten og MEg var deltakelseskriteriene at man led av en utmattelsessykdom i en slik grad at man ikke kunne stå i jobb eller studere fulltid. Vi har fått spørsmål om hvorvidt det hadde vært nyttig å også inkludere tidligere syke, men det er uvanlig i brukerundersøkelser å involvere tidligere brukere. En begrensning blir da at mens vi kan studere assosiasjoner mellom tjeneste/tiltaksmottak og om man arbeider noe eller ikke, så omfatter ikke utvalget deltakere som er tilbake i full jobb. Det er lite solide data på tilfriskning fra ME, bla grunnet uklarhet om definisjonen på tilfriskning. Vi håper å få ut noe informasjon om dette fra registerdataanalysene under prosjektet, og kan da se surveyresultatene i perspektiv av dette.

DePaul University har utviklet validerte algoritmer med hensyn på å definere ME-tilfeller i spørreskjemaundersøkelser (Jason et al., 2015, 2017, 2018, 2020; Bedree et al, 2019; Murdock et al, 2016). Det er utviklet separate algoritmer for Canadakriteriene, Fukudakriteriene, IOMkriteriene og ICCKriteriene, og disse baserer seg på

variabler og indekser fra spørreskjemaet DePaul Symptoms Questionnaire (DSQ) og RAND-spørreskjemaet SF-36. (Se [syntaksfiler her](#)). Mens slike metoder ikke kan gi en fullgod diagnose, er de trolig godt anvendelige som proxy til pasientens sykdomsform og grad, relativt til de ulike diagnosekodene. For eksempel er anstrengelsesutløst symptomforverring (PEM) obligatorisk i algoritmen for Canadakriteriene, men polytetisk i algoritmen for Fukuda, og terskelen for PEM er høyere ved Canadakriteriene. En norsk prospektiv studie ser på sensitivitet og spesifisitet ved sammenlikning av DSQ og klinisk undersøkelse. Studien finner få type 1 feil (sensitivitet), men noe lavere spesifisitet (Strand, et al 2016).

DSQ og SF-36 er inkludert i spørreundersøkelsen, Canada- og Fukuda-algoritmene er beregnet av Fafo's statistiker, og estimatene validert av en statistiker ved DePaul University. Vi fikk da data som kunne skille ut en populasjon som mer sannsynlig ville møtt Canadakriteriene også ved en klinisk undersøkelse. Vi kan se på den separat (i tråd med krav fra oppdragsgiver), sammenlikne den med gruppen som har fått en G93.3-diagnose, og sammenlikne den med de deltakerne som kun møtte Fukudakriteriene i DSQs algoritmer.

RDS har også andre fordeler. Bruk av pasientregisteret til uttrekk av surveyutvalg er stadig vanskeligere på grunn av skjerpingen i personvernreglene. Utsendelser til slike utvalg har også vist dalende responsrater. RDS tilbyr på sin side mulighet for absolutt identitetsvern. RDS vil, i motsetning til vanlige åpent tilgjengelige brukerundersøkelser, begrense adgangen for de mest ivrige spørreskjemaespondentene i populasjonen, og de som er mest aktive online. Rekruttering vil i større grad inkludere personer som velger å delta av sosial forpliktelse overfor den bekjente som rekrutterer dem.

Metodens begrensninger er at den utmattelsesyke som ikke var i kontakt med en eneste annen utmattelsesyk vil ha en rekrutteringssannsynlighet på null. Svært syke uten noen til å hjelpe vil også kunne ha fått problemer med å gjøre ferdig en såpass lang survey, men det er en utfordring vi deler med de fleste utvalgsmetoder.

I prosjektet Tjenesten og MEg vurderer vi at RDS fungerte godt. Undersøkelsen nådde 660 personer som besvarte hele spørreskjemaet, og vi fikk de lange kjedene vi ønsket. På de fleste variabelverdiene kan vi konstatere at utvalgsekvilibrum nås et sted mellom 250 og 300 deltakere. Vi ville dermed trolig kun fått små endringer dersom vi hadde fortsatt rekrutteringen utover de 660. Det var knyttet særlig spenning til risikoen for mulig opphopning av deltakere som var, eller ikke var, medlemmer i ME-Foreningen, grunnet antakelser om perspektivforskjeller mellom de to gruppene. Ved studier av rekrutteringskjedene finner vi ingen tilløp til slike opphopninger, medlemmer og ikke-medlemmer av ME-Foreningen har rekruttert hverandre fram og tilbake, undersøkelsen igjennom. Omtrent en tredjedel av deltakerne var ikke ME-Foreningsmedlemmer.

Referanser

- Bedree, H., Sunnquist, M., L.A. Jason (2019). "The DePaul Symptom Questionnaire-2: a validation study". *Fatigue: Biomedicine, Health & Behavior*: 1–14. doi:10.1080/21641846.2019.1653471. ISSN 2164-1846.
- Bragé, B, A. Michos, B. Drum, M. Fahlgren, R. Szulkin and B. C. Bertilson. 2020. Signs of Intracranial Hypertension, Hypermobility, and Cranio-cervical Obstructions in Patients With Myalgic Encephalomyelitis/Chronic Fatigue Syndrome. *Front. Neurol.*, 28 August 2020. <https://doi.org/10.3389/fneur.2020.00828>

- Heckathorn, D. D. (1997). Respondent-driven sampling: A new approach to the study of hidden populations. *Social Problems*, 44(2), 174–199. <https://doi.org/10.2307/3096941> [Crossref], [Web of Science ®], [Google Scholar]
- Heckathorn, D. D. (2002). Respondent-driven sampling II: Deriving valid population estimates from chain-referral samples of hidden populations. *Social Problems*, 49(1), 11–34. <go to isi>://000174752600002 <https://doi.org/10.1525/sp.2002.49.1.11> [Crossref], [Web of Science ®], [Google Scholar]
- Jason, L.A., S. McManimen, M. Sunnquist, J.L. Newton & E.B. Strand (2017): Clinical criteria versus a possible research case definition in chronic fatigue syndrome/myalgic encephalomyelitis. *Fatigue: Biomedicine, Health & Behavior*, DOI: 10.1080/21641846.2017.1299077
- Jason, L.A., Sunnquist, M. (2018). The Development of the DePaul Symptom Questionnaire: Original, Expanded, Brief and Pediatric Versions. *Frontiers in Pediatrics*. doi:10.3389/fped.2018.00330.
- Jason, L.A., S. So, A.A. Brown, M. Sunnquist, M. Evans, (2015). Test-Retest Reliability of the DePaul Symptom Questionnaire. *Fatigue: Biomedicine, Health & Behavior*. 3 (1): 16–32. doi:10.1080/21641846.2014.978110. ISSN 2164-1846. PMC 4788471. PMID 26973799.
- Jason, L.A., M. Sunnquist, A. Brown, J. Furst, M. Cid, J. Farietta, B. Kot, C. Bloomer, L. Nicholson, Y. Williams, R. Jantke, J.L. Newton, E.B. Strand. (2015). Factor Analysis of the DePaul Symptom Questionnaire: Identifying Core Domains. *Journal of Neurology and Neurobiology*, 1 (4), doi:10.16966/2379-7150.114
- Johnson, M.L., J. Cotler, J.M. Terman, L.A. Jason. (2020). Risk factors for suicide in chronic fatigue syndrome. *Death Studies*: 1–7. doi:10.1080/07481187.2020.1776789. ISSN 0748-1187.
- Murdock, K.W., X.S. Wang, Q. Shi, C.S. Cleeland, C.P. Fagundes, S.D. Vernon. (2016). The utility of patient-reported outcome measures among patients with myalgic encephalomyelitis/chronic fatigue syndrome. *Quality of Life Research*, doi:10.1007/s11136-016-1406-3, PMID 27600520
- Owe, J. F. et al 2016. [Investigation of suspected chronic fatigue syndrome/myalgic encephalopathy](#). *Tidsskrift for den norske legeförening*. 2016, 136: 227-32, doi: 10.4045/tidsskr.15.0229
- Solomon L, Reeves WC. Factors influencing the diagnosis of chronic fatigue syndrome. *Archives of Internal Medicine*. 2004;164(20):2241–2245. [PubMed]
- Strand, E.B., K. Lillestøl, L.A. Jason, K. Tveito, L.M. Diep, S.S. Valla, M. Sunnquist, I.B. Helland, I. Herder & T. Dammen. (2016) Comparing the DePaul Symptom Questionnaire with physician assessments: a preliminary study, *Fatigue: Biomedicine, Health & Behavior*, 4:1, 52-62, DOI: 10.1080/21641846.2015.1126026