

Metod för hälsoekonomisk utvärdering av kognitiva hjälpmedel

– En kartläggning av relevanta och
accepterade värdeattribut och metoder



Sara Olofsson
Rikard Althin
Peter Lindgren



IHE Rapport
2022:3

METOD FÖR HÄLSOEKONOMISK UTVÄRDERING AV KOGNITIVA HJÄLPMEDEL
– EN KARTLÄGGNING AV RELEVANTA OCH ACCEPTERADE VÄRDEATTRIBUT
OCH METODER

Sara Olofsson
Rikard Althin
Peter Lindgren

IHE – Institutet för Hälso- och Sjukvårdsekonomi

Citera rapporten som:

Olofsson S, Althin R, Lindgren P. Metod för hälsoekonomisk utvärdering av kognitiva hjälpmedel - En kartläggning av relevanta och accepterade värdeattribut och metoder. IHE Rapport 2022:3, IHE: Lund.

Studien har finansierats av Abilia AB. Författarna själva ansvarar för studiens design, genomförande och slutsatser.

IHE RAPPORT 2022:3

e-ISSN: 1651-8179

ISSN: 1651-7598

Rapporten kan laddas ner från IHE:s hemsida.

Förord

Hälsoekonomiska utvärderingar har hittills framför allt efterfrågats av myndigheterna inom läkemedelsområdet men har successivt kommit att efterfrågas även inom området för medicinteknik. Kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar är medicintekniska produkter som befinner sig i gränslandet mellan medicinområdet och det sociala området vilket innebär att de delvis faller utanför mallen och är förknippade med värdeattribut som inte alltid beaktas i modellen för utvärdering av läkemedel. Syftet med denna rapport att undersöka vilka värdeattribut som är relevanta och accepterade inom området för kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar.

Studien har finansierats av Abilia AB. Författarna själva ansvarar för studiens design, genomförande och slutsatser.

Vi vill rikta ett stort tack till deltagarna vid de digitala rundabordssamtal som genomfördes inom ramen för denna studie.

Lund, maj 2022

Peter Lindgren
verkställande direktör, IHE

Sammanfattning

Hälsoekonomisk utvärdering efterfrågas traditionellt för läkemedel men i växande takt även för medicintekniska produkter. Kognitiva hjälpmedel är medicintekniska produkter som bland annat ska hjälpa personer med kognitiva funktionsnedsättningar med tidshantering, organisation och planering samt uppmärksamhet. Traditionella hälsoekonomiska utvärderingar av läkemedel beaktar konsekvenser som eventuella besparingar inom hälso- och sjukvården och omsorgen samt hälso-relaterad livskvalitet och överlevnad. För kognitiva hjälpmedel kan det handla om delvis andra konsekvenser och syftet med rapporten var att kartlägga vilka värdeattribut som är relevanta och accepterade inom området för kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar.

Baserat på rundabordssamtal med representanter för relevanta organisationer med kunskap inom området identifierades tre viktiga områden för att få med samtliga relevanta värdeattribut. Det första handlade om ett brett samhällsekonomiskt perspektiv som inkluderar konsekvenser för bland annat närstående och skola. Det andra handlar om ett långsiktigt perspektiv som inkludera preventiva effekter i form av mindre produktionsbortfall och sociala insatser till följd av bättre skolresultat. Det tredje handlar om livskvalitetsaspekter utanför hälsorelaterad livskvalitet, såsom självständighet, delaktighet och självkänsla.

Baserat på rundabordssamtal med representanter för relevanta myndigheter konstaterades att det saknades full acceptans för att inkludera produktionsbortfall, effekter på närstående och icke hälso-relaterad livskvalitet. Det fanns dock en viss diskrepans mellan myndigheternas synsätt. En utmaning är att kognitiva hjälpmedel befinner sig i gränsområdet mellan medicinteknik och sociala insatser. Inom området för medicinteknik är det av tradition vanligt att fokusera på konsekvenser inom hälso- och sjukvårdssektorn medan det inom det sociala området är högst relevant med ett brett samhällsekonomiskt perspektiv och där tanken på sociala insatser som en investering börjar slå rot inom kommuner och regioner.

Rapportens slutsats är att kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar är ett belysande fall för en diskussion om vad som ska ingå i ett samhällsekonomiskt perspektiv då det både är en medicinteknisk produkt och en social investering. Resultatet visar att det finns en diskrepans i förhållningssätt mellan myndigheter och ett eventuellt behov för mer samordning. Resultatet visar också på stora behov av forskning kring de hälsoekonomiska effekterna av kognitiva hjälpmedel.

Innehåll

Förord.....	3
Sammanfattning	4
1. Bakgrund.....	6
2. Syfte	8
3. Metod	9
4. Resultat.....	10
4.1 Relevanta värdeattribut	10
4.2 Breda samhällsekonomiska effekter.....	12
4.2.1 Myndigheters och organisationers formella råd och rekommendationer	14
4.3 Effekter på lång sikt	15
4.3.1 Myndigheters och organisationers formella råd och rekommendationer	16
4.4 Livskvalitet.....	17
4.4.1 Myndigheters och organisationers formella råd och rekommendationer	21
4.5 Accepterade värdeattribut och metoder.....	21
5. Diskussion	24
Referenser	27

1. Bakgrund

Traditionellt har myndigheternas arbete med hälsoekonomi fokuserat på läkemedelsfrågor, framför allt bedömningar av kostnadseffektiviteten vid lanseringen av nya läkemedel. Gradvis ser vi dock ett ökat intresse av ekonomisk utvärdering av medicinteknik. Sedan några år tillbaka har det mycket inflytelserika National Institute for Health and Care Excellence (NICE) i England ett program för utvärdering av medicintekniska produkter. I Sverige har medicintekniska produktrådet (MTP) startat upp arbetet med att stödja den nationella processen för ordnat införande av medicinteknik modellerat på NT-rådets arbete där hälsoekonomisk bedömning spelar stor roll. Tandvårds- och läkemedelsförmånsverket (TLV) tar fram hälsoekonomiskt underlag för medicintekniska produkter på uppdrag av MTP-rådet.

Ett exempel på en medicinteknisk produkt är vissa typer av kognitiva hjälpmedel avsedda att kompensera för och/eller förbättra kognitiva funktionsnedsättningar som till exempel förekommer vid neuropsykiatriska funktionsnedsättningar som ADHD (attention deficit hyperactivity disorder), ADD (attention deficit disorder), AST (autismspektrumtillstånd) och intellektuell funktionsnedsättning. I en litteraturgenomgång av studier kring kognitiva hjälpmedel (assistive technology for cognition, ATC) finner Gillespie et al (1) att dessa primärt stödjer kognitiva funktioner som uppmärksamhet, organisation och planering samt tidshantering. Vad gäller tidshantering kan det handla om svårigheter i att förstå hur länge en aktivitet ska vara (tidsuppfattning), svårigheter att förstå betydelsen av klockan, en timme, en dag, en månad (tidsorientering) och svårigheter att veta vad man ska göra, när man ska göra det och hur länge man ska göra det (tidshantering) (2).

För ungdomar med kognitiva svårigheter kan detta leda till problem med skola och att delta i olika fritidsaktiviteter. Det kan till exempel vara svårt att komma i tid till skolan då personen fastnar i moment som att duscha, klä på sig eller göra sig i ordning, det kan också vara svårt att förstå hur länge en lektion ska pågå vilket kan skapa frustration och bristande tålamod eller så kan det vara svårt att veta när en aktivitet ska ske och hur länge den ska pågå, vilket kan försvåra deltagande i vissa aktiviteter. Ungdomar med dessa problem har mindre självbestämmande/autonomi och deltar mindre i olika aktiviteter (2).

Det finns en växande mängd kognitiva hjälpmedel anpassade för denna typ av problem, så kallade tidshjälpmedel. Till exempel visuell timer med färgade fält som visar hur mycket tid som är kvar, digitalt schema som visar när och vad man planerat att göra under en vecka och applikationer med tids- och påminnelsestöd att ha i mobilen som även tillåter närstående att lägga in moment i planeringen. I en avhandling från 2019 visar Birgitta Wennberg i en randomiserad klinisk prövning (RCT) att tidshjälpmedel kan leda till en förbättrad tidsuppfattning och tidshantering för barn med ADHD (9-15 år) (3).

Vid bedömningen av värdet av traditionella läkemedel i Sverige tas normalt hänsyn till hälsovinsten för den behandlade patienten i form av antalet vunna kvalitetsjusterade levnadsår (QALYs), vilket fokuserar på vinster i hälsorelaterad livskvalitet (kopplad till fysisk funktion och psykisk ohälsa) samt överlevnad. Utöver detta beaktas normalt även eventuella besparingar inom hälso- och sjukvård samt omsorg. En utmaning med värdering av klass-1 hjälpmedel riktade till personer med olika former av kognitiva problem är att de delvis faller utanför den gängse mallen. För kognitiva hjälpmedel kan det i första hand handla om andra faktorer och värden såsom livskvalitet kopplad till större självbestämmande och autonomi och minskad börda för de närstående. Det är därför oklart om och hur modellen för ett läkemedels kostnadseffektivitet kan och bör användas för att bedöma kostnadseffektiviteten av kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar.

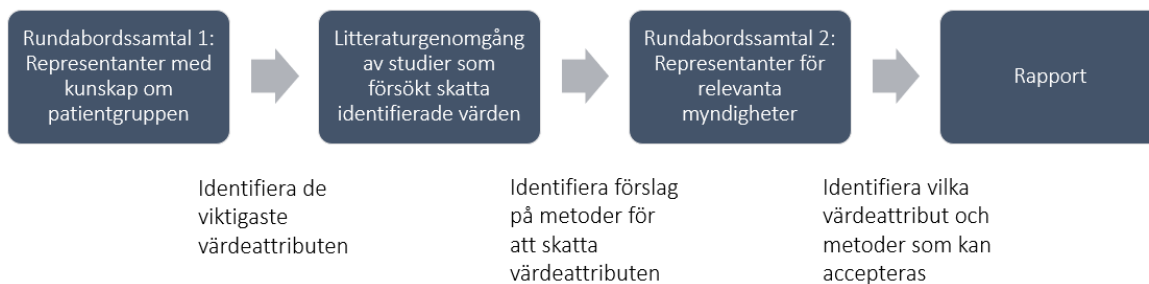
Det är idag oklart vilken evidens som är relevant och som efterfrågas. Svenska myndigheter har i huvudsak anslutit sig till ett samhällsekonomiskt perspektiv, men det råder idag en viss osäkerhet kring hur brett detta perspektiv är och vilka konsekvenser som myndigheterna anser ska ingå i en hälsoekonomisk studie. Samtidigt pågår en debatt om att det finns ett behov av att vidga den traditionella hälsoekonomiska analysen för att kunna ta hänsyn till samtliga värden i samband med införandet av en ny medicinsk teknologi (4). Det är företagen som utvecklar produkterna som har ansvar för att ta fram evidensen.

2. Syfte

Syftet med denna studie är att undersöka vilka värdeattribut som kan anses relevanta och accepterade inom området för kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar för att kunna ta fram ”best practice” för hur värdet av klass 1 hjälpmedel riktade till ungdomar med kognitiva problem kan beskrivas på ett sätt som är relevant för myndigheternas prioriteringsdiskussioner.

3. Metod

Studien genomförs med hjälp av två så kallade digitala rundabordsamtal och en litteraturgenomgång. Syftet med det första rundabordsstalet var att identifiera de viktigaste värde drivarna för kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar. Till detta rundabordsamtal inbjöds representanter med kunskap om den aktuella målgruppen, till exempel patientorganisationer, professionsorganisationer och forskare. Syftet med det andra rundabordsstalet var att identifiera vilka värde drivare som accepteras av myndigheter vid en hälsoekonomisk utvärdering av kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiv funktionsnedsättning. Till detta rundabordsamtal inbjöds representanter för relevanta myndigheter, inklusive TLV (Tandvårds- och läkemedelsförmånsverket), SBU (Statens beredning för medicinsk och social utvärdering) och Socialstyrelsen. Efter det första rundabordsstalet gjordes en litteraturgenomgång med syfte att identifiera studier som försökt skatta de värden som identifierats som centrala. Detta gav visst underlag för samtalen under det andra rundabordsstalet. Figur 1 sammanfattar studiens upplägg. Tabell 1 ger en beskrivning över litteratursökningen.



Figur 1. Sammanfattning av studiens upplägg

Tabell 1. Sammanfattning av litteratursökning

Sökning	Sökväg - sökord	Antal träffar**
#1	PubMed* - "assistive technology" AND ("cost effectiveness" OR cost OR preference)	antal träffar: 338, efter titel och abstract: 6 st
#2	PubMed* - (adhd OR autism OR intellectual disability) AND ("willingness to pay" OR "time trade off" OR "standard gamble" OR "EQ-5D" OR "SF-36")	antal träffar: 89, efter titel och abstract: 34 st
#3	PubMed* (adhd OR autism OR intellectual disability) AND ("post-school outcome" OR "school outcome" OR "school performance" OR "productivity")	antal träffar: 240, efter titel och abstract: 0 st
#4	NICE – Medical technologies guidelines	n=53 – inget relevant
#5	Korsreferenser	
#6	Rapporter via rundabordsstalets deltagare	

*Sökning PubMed – 2021-10-21. Avgränsad till de senaste 10 åren. Engelska eller svenska.

**Inklusionskriterie: skattat konsekvensen på ett sätt som kan inkluderas i hälsoekonomisk analys, kan vara andra populationer om rätt åtgärd (d v s hjälpmedel), kan vara andra åtgärder om rätt population (d v s kognitiv funktionsnedsättning).

4. Resultat

4.1 Relevanta värdeattribut

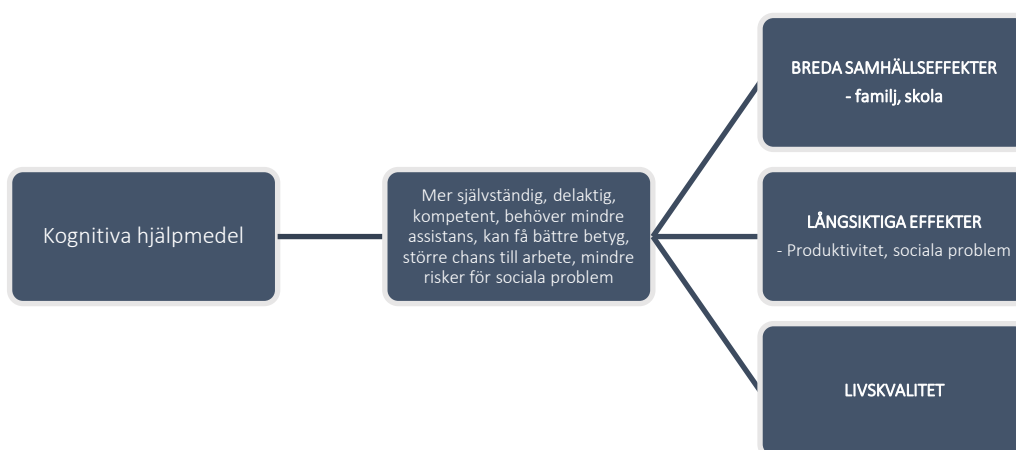
Deltagarna vid första rundabordssamtalet betonade vikten av ett bredare *samhällsperspektiv* för att kunna beakta konsekvenser som faller på familjen och skolan. De flesta var överens om att kognitiva hjälpmedel inte bara är till hjälp för ungdomen utan i högsta grad även för de närstående, till exempel föräldern som behöver ägna mindre tid på att hjälpa sitt barn och därmed kan få mer fritid och eventuellt även arbeta i större utsträckning. Dessutom ansåg man att föräldrarnas relation till barnet kan förbättras då barnet blir mer självständig vilket också kan leda till färre konflikter och innebär att även föräldrarnas livskvalitet kan påverkas. Skolan ansågs också vara en central aktör som kan påverkas, då ungdomens behov av hjälp och assistans kan minska. Exempel som nämndes för detta var att en lärare kunde sluta ringa hem till en elev för att se till att denne kom i tid till skolan. Även behovet av transporter skulle kunna minska om individen blev mer självständig och själv kunde ta sig mellan olika platser i rätt tid. Det fanns också ett resonemang om att en del ungdomar eventuellt skulle kunna bli klara med sin utbildning snabbare vilket skulle kunna leda till besparingar i utbildningskostnader.

De flesta deltagare var också överens om att det finns behov av ett *långsiktigt perspektiv* för att ta hänsyn till den preventiva effekten av kognitiva hjälpmedel. Utgångspunkten var att denna grupp generellt har sämre resultat i skolan vilket kan leda till psykisk ohälsa, lägre sysselsättningsgrad, missbruk och sociala problem (utanförskap). Ett hjälpmedel som kan bidra till bättre resultat i skolan (och därmed ge en känsla av kompetens och självkänsla) kan på sikt också kan resultera i högre sysselsättningsgrad och mindre produktionsbortfall samt lägre kostnader för sociala insatser. Dessutom kan det förväntas påverka individens livskvalitet positivt.

Slutligen var samtliga deltagare överens om att den subjektiva upplevelsen på *livskvaliteten* var ett centralt, och kanske det viktigaste, värdet. Detta till följd av ungdomar med kognitiva hjälpmedel skulle kunna bli mer självständiga och inte lika beroende av sina föräldrar, få större självkänsla till följd av att man känner sig mer säker och kapabel att utföra och fullfölja uppgifter, bli mer delaktiga i skola och fritidsaktiviteter och få mer energi då det inte kräver så mycket att behålla fokus och förstå information. Frågeformuläret EQ-5D, som är standard för att mäta livskvalitet inom hälsoekonomi, ansågs mindre lämpligt för att mäta livskvalitet eftersom det inte inkluderar alla relevanta aspekter. Det ansågs dock centralt att få med det subjektiva perspektivet och en mätning ska utgå ifrån vad som är normalvärde för en ungdom utan funktionsnedsättning och som inte går att uppnå idag på grund av hindren.

Sjukvårdskostnader nämndes inte under rundabordsamtalen, däremot togs det upp att behovet av läkemedel eventuellt skulle kunna minska för de ungdomar som blev stabilare med det kognitiva hjälpmedlet.

Figur 2 sammanfattar de centrala värde drivarna av kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar enligt deltagarna vid det första digitala rundabordsamtalet. Tabell 2 delar upp konsekvenserna i de traditionella kategorier som brukar användas i kostnadsskattningar för sjukdomar samt indikerar var det finns frågetecken kring myndigheternas acceptans för konsekvensen i samband med en hälsoekonomisk utvärdering.



Figur 2. Centrala värde drivare för kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar baserat på första rundabordsamtalet

Tabell 2. De mest centrala hälsoekonomiska konsekvenserna i samband med användning av kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar

Värdeattribut	Påverkan vid kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar?	Ingår i standardmodellen
Direkta medicinska kostnader		
Sjukvård	(X)	Ja
Läkemedel	(X)	Ja
Direkta icke-medicinska kostnader		
Formell omsorg (t ex personlig assistent)	X	Ja
Informell omsorg (t ex förälder)	X	?
Transporter	X	Ja
Skola	X	?
Framtida sociala insatser	X	?
Indirekta kostnader		
Produktionsbortfall – närstående	X	?
Framtida produktionsbortfall – barn	X	?
Intangibla kostnader		
Livskvalitet – barn: delaktighet, självständighet, självkänsla	X	?
Livskvalitet – närstående	X	?

(X) = till viss del, ? = oklarhet i om de omfattas av standardmodellen.

4.2 Breda samhällsekonomiska effekter

Kognitiva hjälpmedel kan påverka flera aktörer i samhället och det kan därför vara viktigt att tillämpa ett brett samhällsekonomiskt perspektiv som inkluderar effekter på närstående/familj, skola, socialtjänst med flera.

Studier av kostnaderna för aktuella diagnoser bekräftar att en majoritet uppstår utanför sjukvården. Framför allt är kostnader för skola och informell omsorg höga. Till exempel redovisar Doshi et al en merkostnad för utbildning motsvarande 2 222-4 690 USD per ungdom med ADHD i USA baserat på en litteraturgenomgång. Detta motsvarar 35-40 % av de totala kostnaderna för ADHD bland barn och ungdomar i USA (5). Le et al fann via en systematisk litteratursökning av studier av kostnaderna i Europa att utbildningskostnaden för barn och ungdomar med ADHD uppgick till 6 141 EUR vilket motsvarar 42-62 % av den totala samhällskostnaden per barn och ungdom i Nederländerna (9 860-14 483 EUR) (6). Merkostnaderna för skola uppstår på grund av specialutbildning, extra lektioner, extra läroår, samt kostnader för rådgivning och disciplinära åtgärder. Buescher et al skattade livstidskostnaden för autism baserat på en litteraturgenomgång till 1,4-2,4 miljoner USD i USA och 1,4-2,2 miljoner USD i Storbritannien. De största kostnadskomponenterna var specialutbildning och föräldrarnas produktionsbortfall (7). Studierna av dessa kostnader baserades i flera fall på register och för att koppla kostnaden till diagnosen användes bland annat regressionsanalys eller en matchad kontrollgrupp.

Närstående kan också bära en stor börda av sjukdomen eftersom ungdomen bland annat kan vara i behov av hjälp för att bli färdig med uppgifter i tid, komma i tid och planera och organisera sin vardag. Denna så kallade informella omsorg betraktas som en kostnad ur ett samhällsperspektiv och kan mätas och värderas. I Australien lät Busher et al (7) föräldrar kartlägga hur mycket tid de la på omsorgen om sitt barn med autism i en tidsdagbok och fann att det uppgick till betydande mängder tid. Varje månad la en förälder cirka 152 timmar i genomsnitt på informell vård, vilket inkluderade personlig vård, socialt stöd och hushållssysslor. Det framgick även att föräldrarna generellt dragit ned på sitt förvärvsarbete och/eller valt ett arbete som tillät dem att ge den omsorg som deras barn behövde. Den totala kostnaden per barn uppgick till 72 027 AUD per år, varav 84 % bestod av informell omsorg värderad enligt kostnaden för att anlita en professionell omsorgsgivare (32 AUD per timme). I studier av insatser för demens eller Alzheimers ingår ofta informell omsorg som en komponent. Informell omsorg kan värderas med olika metoder, som i exemplet ovan baserat på vad det skulle kostat att anställa en professionell omsorgsgivare att utföra samma omsorg (marknadsvärdesprincipen), värdet av den tid som den närstående behöver ge upp vilken ofta antas motsvara nettolönen (alternativkostnadsprincipen), eller baserat på vad den närstående skulle betala för att slippa behöva ge omsorg (betalningsviljemetoden).

Behovet av informell vård kan antas variera mellan länder beroende på hur systemet för formell omsorg (t ex personlig assistent) är uppbyggt. Av detta skäl är det svårt att generalisera resultat mellan länder. För en svensk kontext, finns det en studie av Hjälpmedelsinstitutet som gjort ett försök att utvärdera teknologiska hjälpmedel för personer med kognitiv nedsättning (8). Studien baserades på litteraturgenomgång och intervjuer. Utvärderingen avgränsades till skattningar av minskat behov av stödinsatser från kommun och landsting (formell omsorg) och minskat behov av stödinsatser från anhöriga (informell omsorg). Hjälpmedlets effekt på behovet av stödinsatser baserades på antaganden utifrån litteratur och intervjuer. Studien fann en kostnadsbesparing med teknologiska hjälpmedel.

Livskvaliteten för närstående kan också påverkas vid användning av kognitiva hjälpmedel (så kallad spill-over utility). Livskvaliteten bland föräldrar med barn med aktuella diagnoser har skattats med EQ-5D och andra instrument (Tabell 3). Livskvaliteten med EQ-5D är relativt hög och skiljer sig inte signifikant från kontrollgrupp i flera studier. Detta kan dock bero på att EQ-5D lämpar sig sämre för att mäta livskvalitet bland närstående eftersom detta berör dimensioner som inte ingår i EQ-5D. SF-6D är ett mått som också går att använda i hälsoekonomiska utvärderingar och som tycks respondera mer på effekten av att vara närstående. Det finns även andra instrument specifikt framtagna för att mäta effekten på närstående ("care-giver burden"), till exempel Zarit Burden Interview (ZBI, https://eprovide.mapi-trust.org/instruments/zarit-burden-interview#review_copy) och Carer-QoL (https://www.imta.nl/assets/uploads/2017/03/CarerQoL_Swedish.pdf). För Carer-QoL finns det preferensbaserad livskvalitetsvikter framtagna och det kan därför användas i ekonomiska utvärderingar förutsatt att myndigheterna anser att det har godtagbar validitet. För ZBI saknas för närvarande preferensbaserade¹ livskvalitetsvikter.

Tabell 3. Livskvalitet bland anhöriga som tar hand om personer med aktuella diagnoser

Referens	Land	Diagnos	Instrument	Resultat (Skala 0-1)
Khanna et al.2013(9)	USA	Autism	EQ-5D	0,82
			EQ-VAS	0,76
Brown et al.2019(10)	USA	Autism	EQ-5D	0,85
			SF-6D	0,74
Lavelle et al2019(11)	USA	Autism	TTO Skillnad mot kontroll	-0.05 (ej signifikant)
Lee et al 2021 (12)	USA	Intellektuell funktionsnedsättning	EQ-5D	0,84 (ej signifikant)
			SF-6D	0,80
Peasgood et al 2021 (13)	UK	ADHD	EQ-5D Skillnad mot kontroll	-0,071
			EQ-VAS Skillnad mot kontroll	Ej signifikant
Ten Hoopen et al 2021 (14)	Nederländerna	Autism	EQ-5D	0,84 (ej signifikant)
			Carer-QoL	77,33

¹ Preferensbaserad betyder att livskvalitetsvikten härleds med en metod som ber respondenten göra en hypotetisk uppoffring för att få bättre hälsa. Med metoden "Standard Gamble" är uppoffringen risk för att dö och med metoden "Time Trade Off" är uppoffringen återstående tid kvar att leva.

4.2.1 Myndigheters och organisationers formella råd och rekommendationer

Då man gör en hälsoekonomisk utvärdering skiljer man på ett hälso- och sjukvårdsperspektiv och ett samhällsekonomiskt perspektiv. Med ett hälso- och sjukvårdsperspektiv avgränsas analysen till sjukvårdskostnader, överlevnad och hälsorelaterad livskvalitet. I det samhällsekonomiska perspektivet vidgas analysen och tar även hänsyn till effekter på andra samhällsaktörer. I Sverige har de aktörer som gör någon form av hälsoekonomisk utvärdering (TLV, Socialstyrelsen och Folkhälsomyndigheten) anslutit till ett samhällsekonomiskt perspektiv. TLV tillämpar dock sedan 2015 ett snävare samhällsperspektiv som inte inkluderar produktionsbortfall. Detta med anledning av den etiska plattformen för prioriteringar inom vård och omsorg. Denna plattform beskriver tre principer enligt följande ordning: människovärdesprincipen – alla ska behandlas lika, behov- och solidaritetsprincipen – den som har störst behov ska få vård först, kostnadseffektivitetsprincipen – det ska finnas en rimlig avvägning mellan kostnad och patientnytta. TLV menar att produktionsbortfall kan strida mot människovärdesprincipen eftersom det kan ge ett högre värde för behandlingar som riktar sig mot individer i arbetsför ålder (15, 16). Både Socialstyrelsen och Folkhälsomyndigheten inkluderar dock fortfarande produktionsbortfall i hälsoekonomiska utvärderingar (17, 18).

På internationell nivå har det skett en rörelse mot ett bredare samhällsperspektiv i hälsoekonomiska utvärderingar. ”The Second Panel on Cost Effectiveness” är en samling av experter inom hälsoekonomi som 2016 gav ut rekommendationer för utförandet av hälsoekonomiska utvärderingar. De uppdaterade rekommendationerna från ”The First Panel on Cost Effectiveness” från 1996 som har kommit att få ett relativt stort inflytande på utförandet av hälsoekonomiska utvärderingar. Trots att den första panelen rekommenderade ett ”reference case” med samhällsperspektiv är erfarenheten efter 1996 att de flesta hälsoekonomiska utvärderingar ändå tillämpar ett hälso- och sjukvårdsperspektiv. De studier som använder ett samhällsperspektiv lägger in olika kostnadstyper och det saknas en konsekvent tillämpning. De nya rekommendationerna från 2016 specificerade därför att det bör göras ett ”reference case” med hälso- och sjukvårdsperspektiv *och* ett ”reference case” med ett samhällsperspektiv. Vad som skulle ingå i respektive perspektiv specificerades och samhällsperspektiv skulle inkludera bredare konsekvenser inom vad som kallades informell hälso- och sjukvårdssektor (tidskostnad för patient, obetald omvårdnad av anhörig, transportkostnad) samt sektorer utanför hälso- och sjukvårdssektorn (produktivitet, konsumtion, socialtjänst, rättsväsende, utbildning – påverkan på utbildningsnivå, bostäder, miljö och annat) (19). Det finns även en pågående debatt kring hur väl den nuvarande modellen för ekonomiska utvärderingar fångar samtliga relevanta värden av åtgärder inom hälso- och sjukvården (4).

Både ”Second Panel” och TLV:s motsvarighet i Storbritannien, NICE, rekommenderar inkludering av livskvalitet för anhöriga (så kallade ”spill-over effects”) i bedömning av kostnadseffektivitet. Det är fortfarande oklart hur man bör mäta detta för att undvika dubbelräkning (10). TLV har inte tagit

ställning i denna fråga men överväger att acceptera inkludering av detta i framtida utvärderingar. Framförallt har detta kommit att bli aktuellt då nya läkemedel är på gång för Alzheimers sjukdom där anhörigbördan är stor (16).

4.3 Effekter på lång sikt

Tidiga insatser hos barn och ungdomars kognitiva förmåga kan leda till effekter på lång sikt i form av bland annat högre sysselsättningsgrad. Nationalekonomen och professorn Lars Hultkrantz skrev 2015 en rapport för SNS om utvärderingar av sociala investeringar (20). Han poängterar att det är av stor vikt att använda ett investeringsperspektiv och inkludera de långsiktiga vinsterna för att beslutsfattandet inte ska bli för kortsiktigt. Han betonar också behovet av ett samhällsperspektiv för att få med de relevanta konsekvenserna och hålla fokus på målet med insatsen, som ytterst är att skapa bättre möjligheter för barn och ungdomar i sitt vuxna liv.

Hultkrantz går igenom ett antal exempel på studier av sociala investeringar. Ett av de mest lovande av dessa är en studie av Washington State Institute of Public Policy (WSIPP). Deras analys bygger för det första på en metaanalys som ger en skattning av effekten av en viss åtgärd och bedömer också studiernas kvalitet med betoning på om de kan belägga kausalitet. För det andra används en modell för att skatta det samhällsekonomiska utfallet genom att länka de intermediära effekterna i metaanalysen (t ex utbildningsresultat) till långsiktiga samhällsekonomiska effekter (t ex inkomst). Modellen innehåller en modul för att beräkna humankapitaleffekter, kostnader för rättsväsende och brottsoffer, kostnad för vanvård av barn samt mortalitetseffekter. Styrkorna med denna studie är att de grundar sig på populationsdata och länkning till samhällsekonomiska utfall baserat på evidens för kausalitet. Den kan dock inte direkt användas för svenska förhållanden eftersom de flesta faktorerna är kontextspecifika.

I Sverige har framför allt samhällsekonomiska analyser av Ingvar Nilsson och Anders Wadeskog blivit kända inom området för sociala investeringar och de har även gjort en rapport om de socioekonomiska effekterna av teknikstöd i skolan för barn och ungdomar med funktionsnedsättning (21). Dessa beräkningar utgår ifrån kostnaden för en typindivid (t ex en person som blir arbetslös vid 25 och är arbetslös till 65 års ålder) och detta skalas sedan upp till en hel grupp baserat på olika antaganden. Hultkrantz menar dock att denna modell har flera brister, bland annat att den inte baserar sig på dokumenterade data vars kvalitet går att bedöma, utgår från extrema antaganden och inte knyter beräkningarna till en konkret åtgärd.

Ytterligare exempel på denna typ av studier är en studie av minskad klasstorlek i mellanstadiet, insatser för att stödja fosterbarn (familjehamsplacerade barn) i deras skolgång, riktade insatser mot barn med utagerande beteende (20) samt föräldrastödprogram (22, 23).

Det stora problemet i samtliga studier är svårigheten att koppla kortsiktigt uppmätta effekter till långsiktiga effekter och utfall. Hultkrantz tar upp tre alternativa metoder: (1) göra en studie över lång tid – helst med möjlighet att kartlägga kausalitet (t ex i en RCT eller matchad kontrollgrupp) (2) skatta utbildningspremie, d v s långtidsprediktorer eller riskfaktorer samt korrigera korrelation med kausalitetsfaktor och (3) göra prognoser (20).

Uppsala universitet och Skandia har tagit fram ett beräkningsverktyg för sociala investeringar som bland annat kopplar det intermediära utfallsmåttet obehörighet till gymnasium till bland annat risken för narkotikamissbruk, ekonomiskt bistånd, alkoholmissbruk och självmord (24, 25).

Social investering har fått ett visst genomslag i kommuner och regioner. I en ESO-rapport om sociala investeringar från 2020 (SOU 2020:1) konstaterar författarna att allt större välfärdsbehov kan leda till budgettätstramningar vilket i sin tur kan leda till nedprioritering av förebyggande insatser (26). Detta till följd av att offentlig sektor är uppdelad och det saknas en helhetssyn. Det finns därför en risk att man prioriterar ned förebyggande insatser för att spara in på kort sikt vilket kan leda till större kostnader på längre sikt. Ett sätt att hantera detta är att se kostnader för sociala insatser som investeringar i humankapital och ta hänsyn till deras konsekvenser på längre sikt. ESO-rapporten visar att sociala investeringar som perspektiv har fått ett visst genomslag och 47 % av kommunerna och hälften av regionerna arbetar med sociala investeringar på något sätt. Avsatta medel är dock fortfarande förhållandevis små. Rapporten menar att sociala investering som perspektiv kan överbrygga stuprör, bryta kortsiktigt budgettänk, främja samarbete mellan huvudmän och betona värdet av utfall och resultat ur ett samhällsekonomiskt perspektiv.

Produktionsbortfall i vuxen ålder är en stor kostnad för den aktuella målgruppen. Enligt Doshi et al. står produktionsbortfallet för 77-84 % av merkostnaden för en vuxen person med ADHD och kan uppgå till omkring 100 000 kronor per person och år (lägre lön och lägre sysselsättning) (5). Able et al. konstaterar att personer med ADHD har 4,2 gånger så hög sjukfrånvaro och 2,4 gånger högre sjuknärvaro jämfört med personer utan ADHD i en studie i Europa vari Sverige ingick (27). Enligt Gjervan et al är ouppmärksamhet en stark prediktor för hur det kommer gå med arbetslivet för personer med ADHD i Norge (28).

4.3.1 Myndigheters och organisationers formella råd och rekommendationer

Enligt TLV:s allmänna råd för ekonomiska utvärderingar ska tidshorisonten för analysen täcka den period då de huvudsakliga hälsoeffekterna och kostnaderna uppstår (15). Då hälsoeffekter och kostnader uppstår långt fram i tiden behöver effekterna i den kliniska prövningen extrapoleras. Detta kan göras via modellering, vilket accepteras av TLV. Osäkerheten i denna extrapolering är dock en

viktig faktor för beslutsunderlaget. Som tas upp i avsnitt 4.3 så tar TLV ej hänsyn till minskat produktionsbortfall.

4.4 Livskvalitet

Det finns vad vi känner till inte några studier som mätt upp förändringar i livskvalitet som en följd av användning av kognitiva hjälpmedel. Varken generellt eller på ett sätt som kan användas i hälsoekonomiska utvärderingar. Däremot finns det flera studier som mätt upp livskvalitet hos personer med de aktuella diagnoserna med instrument som mäter livskvalitet på ett sådant sätt som passar hälsoekonomiska utvärderingar. Det innebär att de ska vara preferensbaserade, det vill säga direkt eller indirekt baserade på en metod där individen ger uttryck för sina preferenser via en uppoffring i hypotetiska val. Frågeformuläret EQ-5D är ett instrument som genererar hälsotillstånd för vilka det finns preferensbaserade livskvalitetsvikter framtagna med en metod som kallas Time Trade Off (TTO). EQ-5D består av fem frågor (dimensioner) om förmåga till rörlighet, förmåga att på egen hand sköta sin hygien, förmåga att utföra huvudsakliga aktiviteter, smärta/besvär samt oro/nedstämdhet. Det finns ett EQ-5D med tre nivåer ("levels") på varje dimension (EQ-5D-3L) och ett EQ-5D med fem nivåer på varje dimension (EQ-5D-5L).

EQ-5D är ett vanligt instrument för att mäta livskvalitet för diagnoser som ADHD, autism och intellektuell funktionsnedsättning. Resultatet av dessa studier visar på en påtagligt nedsatt livskvalitet. De dimensioner som framförallt påverkas är förmåga att utföra vardagliga aktiviteter, oro/nedstämdhet och i vissa fall även förmåga att sköta sin hygien (29). Det finns dock flera som ifrågasätter om EQ-5D kan fånga hela inverkan på livskvaliteten till följd av denna typ av diagnoser.

Kerr et al (30) ifrågasätter till exempel om EQ-5D kan fånga livskvaliteten för diagnosen "Fragile X syndrom" (FXS) eftersom det är ett tillstånd som framförallt har beteendemässiga, sociala och kognitiva konsekvenser. De utvecklar istället ett alternativt mått vars uppbyggnad påminner om EQ-5D (ett frågeformulär och preferensbaserade vikter med TTO) baserat på "Aberrant Behavior Checklist-Community" (ABC-C).

Bouwman et al (31) jämför EQ-5D med ett hälsorelaterat livskvalitetsinstrument speciellt framtaget för barn och ungdomar, det så kallade KIDSSCREEN-10, för att undersöka livskvaliteten hos barn och ungdomar med ADHD. De fann en hög korrelation mellan måtten men inte mellan specifika dimensioner. Att det går bra i skolan (dimension i KIDSSCREEN-10) hade en måttlig korrelation med utförande av dagliga aktiviteter (dimension i EQ-5D). Uppmärksamhet hade ingen, måttlig eller stark korrelation med EQ-5D. Slutsatsen i studien är att båda instrumenten fungerar bra (t ex kan skilja på livskvalitet mellan dem som svarar och inte svarar på behandling) och att EQ-5D kan användas för ekonomiska utvärderingar. De konstaterar dock samtidigt att skolprestation inte helt fångas i dimensionen utförande av vardagliga aktiviteter. Dessutom fann de likt andra studier att

många svarar att det inte finns några problem i någon dimension i EQ-5D, en så kallad "ceiling effect".

KIDSCREEN-10 är ett frågeformulär som togs fram i ett projekt finansierat av EU-kommissionen och pilottestades bland 3000 barn och ungdomar i flera europeiska länder (inklusive Sverige) mellan 2001 och 2004. Det är inte ett preferensbaserat instrument, men det kan översättas ("mappas") till det preferensbaserade instrumentet Child Health Utility-9D (CHU-9D) (32). CHU-9D togs fram baserat på kvalitativa intervjuer bland skolbarn och är anpassat för att mäta hälsorelaterad livskvalitet bland barn och ungdomar i åldrarna 7-17 år.

Matza et al (33, 34) är kritiska mot att använda EQ-5D för att mäta livskvalitet bland barn med ADHD eftersom det inte har dimensioner för ADHD symptom som ouppmärksamhet och impulsivitet. De använde istället TTO för att få fram livskvaliteten för ett antal hälsotillstånd för ADHD. Hypotetiska hälsotillstånd med ADHD (så kallade "vignetter") presenterades för ett urval av befolkningen i Storbritannien och de ombads ange sin preferens för hälsotillståndet i en TTO. Matza et al tar också upp "bolt-on" som ett annat alternativ för att fånga livskvaliteten vid ADHD. Detta innebär att man lägger till diagnos-specifika dimensioner till EQ-5D för att på så sätt behålla EQ-5D som instrument men anpassa det till den specifika diagnosen. Ett exempel på ett sådant instrument är EQ-5D+C som lägger till en kognitiv dimension (35). Den kognitiva dimensionen har visat sig ha en oberoende påverkan på livskvaliteten som är lika stor som övriga dimensioner. Detta instrument har bland annat använts för att mäta livskvalitet vid demens.

Russell et al (36) har undersökt hur väl det fungerar att använda EQ-5D bland personer med milda till måttliga inlärningssvårigheter. De fann att det fanns flera problem vid ifyllnad såsom att förstå språket, förstå betydelse, extrapolera från exempel, förstå svarsalternativ samt svårigheter att svara för idag (tidsuppfattning). I flera fall hjälpte en omsorgsgivare (t ex förälder) till att svara men forskaren upplevde många gånger en diskrepans mellan vad de sa och det som individen med diagnos gav uttryck för eller visade. Detta antyder att det finns problem med att fylla i EQ-5D både då individen gör det själv och då en proxy (t ex föräldern) gör det åt dem.

Även Domellöf et al (29) uttrycker viss skepsis efter att ha uppmätt livskvaliteten med EQ-5D bland barn med kognitiv funktionsnedsättning i Sverige. De fann att livskvaliteten var mindre påverkad än förväntat men att detta kan bero på problem i mätningen och/eller anpassning, det vill säga att barnet vant sig vid sin funktionsnedsättning och därför inte tycker att det är så stort problem.

Glenngård et al (37) undersöker betalningsviljan (willingness to pay, WTP) för olika egenskaper vid ADHD-behandling. Detta undersöks med hjälp av en så kallad discrete choice experiment (DCE) vilket gör det möjligt att härleda betalningsviljan för olika nivåer av en egenskap (t ex svårighetsgrad i problem). Betalningsviljan för en viss (existerande eller framtida) behandling kan sedan härledas genom att summera WTP för de egenskaper som behandlingen har.

Gjervan et al (38) testade korrelation mellan ADHD self-report scale (ASRS) och livskvalitetsinstrumentet SF-36. De fann att ouppmärksamhets-skalan i ASRS korrelerade med dimensionen vitalitet och emotionell rollfunktion i SF-36. Skalan för hyperaktivitet/impulsivitet i ASRS korrelerade med dimensionerna social funktion och mental hälsa i SF-36.

Tabell 4. Studier av livskvalitet bland personer med aktuella diagnoser

Referens	Land	Diagnos Population svarar	Instrument	Resultat (Skala livskvalitet 0-1)
Glenngård et al 2013 (37)	Sverige, Danmark och Norge	ADHD Föräldrar till barn med ADHD (n=117), ungdomar med ADHD (n=52), vuxna med ADHD (n=116)	WTP via discrete choice experiment	WTP per månad i EUR, ungdomar/vuxna: - undvika problem under morgon och dag: 561/252 - Undvika problem under eftermiddag/kväll: 322/145 - Slippa biverkningar: 217/-98 - Slippa extra dos per dag: 96/43
Bouwmans et al 2014 (31)	Nederländerna	ADHD Föräldrar till barn och ungdomar med diagnos – svarar för sina barn (n=739)	EQ-5D	0,81 vs norm 0,91 (skala 0-1)
			KIDSCREEN-10	45,5 vs norm 53,85 (skala: 16,06-57,77)
Domellöf et al 2014 (29)	Sverige	Intellektuell funktionsnedsättning Barn med diagnos vid rehabiliteringscenter i Västerbotten (n=43)	EQ-VAS (EQ-5D-Y – no index reported)	79,4 (skala 0-100)
		Autism (n=61)	EQ-VAS (EQ-5D-Y – no index reported)	80,7
Gjervan et al 2014 (38) och 2016 (28)	Norge	ADHD Vuxna med ADHD (n=149)	SF-36	Mental komponent påverkad
Matza et al 2014 (33, 34)	Storbritannien	ADHD Befolkning (n=158)	TTO	Behandling, svara: 0,82 Behandling, ej svara: 0,68 Obehandlad: 0,65
Peasgood et al 2016 (39)		ADHD Barn med ADHD 6-18 år	Child Health utility-9D (CHU-9D)	0,82 vs 0,88
			EQ-VAS	80,16 vs 86,93
Ahnemark et al 2018 (40)	Sverige	ADHD Vuxna, nydiagnostiserade vid två kliniker i Stockholm (n=189)	EQ-5D	0,63
Joseph et al 2019 (41)	UK	ADHD Vuxna med diagnos (n=233)	EQ-5D	0,74
			EQ-VAS	69,81

Referens	Land	Diagnos Population svarar	Instrument	Resultat (Skala livskvalitet 0-1)
Lavelle et al 2019 (11)	USA	Autism Föräldrar till barn med diagnos (n=135) och kontrollgrupp	TTO Skillnad mot kontroll	-0,12
Micolaud-Franchi et al 2019 (42)	Frankrike	ADHD Vuxna med ADHD (n=363)	EQ-5D	0,66
Pawascar et al 2020 (43)	USA	ADHD Vuxna med diagnos (n=444) eller symptom (n=1055)	EQ-5D	Med diagnos: 0,78 Utan diagnos, med symptom: 0,70
Ten Hoopen et al 2020 (14)	Neder- länderna	Autism Barn (2-10 år) som remitterats till ett av sex kliniker för mental hälsa (n=88)	EQ-5D	0,67

Tabell 5. Dimensioner i instrument för att mäta livskvalitet för personer med aktuella diagnoser

Instrument	Dimensioner
Aberrant Behavior Checklist Utility Index (ABC-UI)	<ul style="list-style-type: none"> * Irritation (aggressive, snabba humörsvingningar) * Socialt apatisk (få sociala reaktioner till andra) * Stereotyp (repetitiva hand, kropps- och huvudrörelser) * Hyperaktivitet (impulsiv, rastlös, distraheras lätt) * Socialt undvikande (isolerar sig själv från andra) * Olämpligt uttal (repetitivt uttal)
KIDSCREEN-10*	<ul style="list-style-type: none"> * Fysiskt mående * Mentalt mående * Humör och känslor * Självuppfattning * Självständighet * Relation till föräldrar och hemförhållande * Socialt stöd och umgänge * Skolmiljö * Social acceptans (mobbing) * Finansiella resurser
Child Health utility-9D (CHU-9D)	<ul style="list-style-type: none"> * Oro * Ledsen * Smärta * Trött * Irriterad * Skolarbete/läxor * Sömn * Daglig rutin * Förmåga att delta i aktiviteter
EQ-5D+C ("bolt-on")	<ul style="list-style-type: none"> * Rörlighet * Hygien * Huvudsakliga aktiviteter (t ex arbete, studie, hushållssysslor, familje- och fritidsaktiviteter) * Smärtor/Besvär * Oro/Nedstämdhet * Kognitiv funktion (t ex minnas eller koncentrera sig)
SF-36*	<ul style="list-style-type: none"> * Fysisk funktion * Fysisk rollfunktion * Smärta * Allmän hälsa * Vitalitet * Mental hälsa * Social funktion * Emotionell rollfunktion

* Ej preferensbaserade men preferensbaserade vikter kan härledas indirekt. För KIDS-SCREEN genom att mappa till CHU-9D. För SF-36 genom att översätta till SF-6D.

4.4.1 Myndigheters och organisationers formella råd och rekommendationer

Enligt TLV:s riktlinjer för hälsoekonomiska utvärderingar bör livskvalitet i första hand baseras på Standard Gamble (SG) eller Time Trade Off (TTO) metod och i andra hand på så kallad Rating Scale (t ex EQ-VAS). Livskvalitetsvikter kan härledas från studier som direkt använt SG och TTO eller via direkt härledning (det vill säga där ett hälsoklassificeringssystem såsom EQ-5D länkats till QALY-vikter framtagna med TTO). TLV accepterar också i viss utsträckning att ett sjukdoms-specifikt instrument översätts (mappas) till ett preferensbaserat instrument som EQ-5D. Livskvalitetsvikter från personer i det aktuella hälsotillståndet föredras framför livskvalitetsvikter från personer i befolkningen som angett preferens för hypotetiska tillstånd. I undantagsfall kan betalningsvilja användas för situationer då det inte lämpar sig att använda QALY. Betalningsvilja anses dock ha lägre relevans eftersom det ofta inte går att urskilja vad som är betalningsvilja för förbättrad hälsa respektive annan typ av nytta (15). TLV har i tidigare beslut inte godkänt inklusion av icke-hälsorelaterad nytta (bekvämlighet). Företaget överklagade men förvaltningsrätten dömde till TLV:s fördel (44). Inom området för förbrukningsartiklar har betalningsvilja accepterats i något större utsträckning än inom läkemedelsområdet vilket beror på att de påverkar patientnytta på ett sådant sätt som inte fångas med traditionella livskvalitetsinstrument (45).

TLV:s motsvarighet i England, NICE, rekommenderar att livskvalitet mäts med EQ-5D eller direkt via TTO. I motsats till TLV föredrar de livskvalitetsvikter som härletts från befolkningen för hypotetiska tillstånd framför livskvalitetsvikter som härletts från personer med det aktuella hälsotillståndet. Inom området för social omsorg accepterar NICE preferensbaserade instrument som mäter icke hälso-relaterad livskvalitet (t ex ASCOT² inom äldreomsorg) eftersom åtgärder inom detta område inte primärt inriktar sig på att förbättra hälsan (46).

4.5 Accepterade värdeattribut och metoder

Tabell 6 sammanfattar myndigheternas acceptans för hälsoekonomiska konsekvenser av kognitiva hjälpmedel.

Vad gäller breda samhällsekonomiska konsekvenser så var samtliga överens om att inkludera eventuella besparingar i formell omsorg. Representanten för SBU betonade dock att det kontra-faktiska alternativet måste kartläggas, det vill säga vad hade individen behövt för formell omsorg om de inte hade haft det kognitiva hjälpmedlet. Besparingar inom skolverksamheten berördes inte direkt men samtliga var överens om att all form av formell omsorg skulle ingå. I frågan om informell

² ASCOT = Adult Social Care Outcomes Toolkit. Mäter livskvalitet genom att fråga om hur väl behov tillgodoses med kontroll över det dagliga livet, ren och presentabel, mat och dryck, trygghet, sociala kontakter, sysselsättning, rent och bekvämt hem, respekt/värdighet.

omsorg (omsorg av närstående, t ex förälder) var synen mer splittrad. TLV ansåg att man möjligen kunde ta hänsyn till detta förutsatt att det mäts upp och värderas på tillförlitligt sätt medan SBU inte tog någon hänsyn till denna konsekvens. SBU tog inte heller hänsyn till livskvalitet för närstående medan TLV förklarade att det kan bli aktuellt att ta hänsyn till detta i framtiden och att det är en fråga som myndigheten tittar på. Det nämndes dock att detta eventuellt kan medföra en etisk problematik eftersom alla inte har en anhörig som ger dem hjälp. Angående produktionsbortfall så bekräftade representanten från TLV att de inte beaktar produktionsbortfall till följd av att det strider mot den etiska plattformen. Representanten för SBU instämde att de också följer den etiska plattformen och därmed drar liknande slutsats.

Vid diskussion om de långsiktiga konsekvenserna (preventionseffekten) fanns inga direkta invändningar mot inkludering men deltagarna betonade att sambanden behöver beläggas för att de ska tas hänsyn till. Långsiktiga konsekvenser på produktivitet togs dock inte hänsyn till av TLV i enlighet med resonemanget ovan vilket innebär att det endast är effekter på t ex sociala insatser och livskvalitet som inkluderas. Representanten för Socialstyrelsen (och tidigare Myndigheten för delaktighet) betonade vikten av det individuella perspektivet och att det kan vara av intresse att även se till långsiktiga konsekvenser. Representanten för SBU menade att långsiktiga konsekvenser inte framförallt är relevanta sett ur perspektivet av en social investering utan viktigt för att ge ett jämlikt liv.

Det fanns även något olika synsätt på frågan om livskvalitet. Representanten för TLV betonade att den livskvalitet som beaktades är den som är hälsorelaterad medan representanten för SBU poängterade behovet att få med aspekter som aktivitet, delaktighet och handlingsfrihet. Representanten för Socialstyrelsen hänvisade till FN:s konvention om rättigheter för personer med funktionsnedsättning som Sverige anslutit sig till och där man ska verka för bland annat självständighet och autonomi. Vad gäller metod för att fånga livskvalitet hänvisade TLV till andra preferensbaserade mått som fångar bredare aspekter än EQ-5D (t ex SF-36) samt möjligheten att översätta/mappa effekten från sjukdomsspecifika instrument till EQ-5D. Inget direkt svar gavs på acceptansen för betalningsvilja i detta sammanhang. Sammantaget menade dock representanten för TLV att det alltid blir en bedömningsfråga av underlag, särskilt i de fall då metoden avviker från standard.

Vad gäller evidens så förklarade representanten för SBU att de i ett projekt för att utvärdera rullstolar inkluderar både randomiserade och icke randomiserade studier. Även kvalitativa studier inkluderas och så kallade "single case experimental design" (SCED), det vill säga där individen är sin egen kontroll (mätning före och efter). SBU hanterar underlaget genom en tillförlitlighetsbedömning så att studier med högre evidensnivå ges större tyngd.

Tabell 6. Myndigheternas acceptans för hälsoekonomiska konsekvenser för kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar

Värdeattribut	Ingår i standardmodellen	TLV	SBU
Direkta medicinska kostnader			
Sjukvård	Ja	Ja	Ja
Läkemedel	Ja	Ja	Ja
Direkta icke-medicinska kostnader			
Formell omsorg (t ex personlig assistent)	Ja	Ja	Ja
Informell omsorg (t ex förälder)	?	Kanske	Nej
Transporter	Ja	Ja	Ja
Skola (t ex mindre personalbehov)	?	Ja	Ja
Framtida sociala insatser	?	(Kanske)	(Kanske)
Indirekta kostnader			
Minskat produktionsbortfall – närstående	?	Nej	(Kanske)
Minskat framtida produktionsbortfall – ungdom	?	Nej	(Kanske)
Intangibla kostnader			
Livskvalitet barn: delaktighet, självständighet, självkänsla	?	Kanske (om hälsorelaterad)	Ja
Livskvalitet – närstående	?	Kanske	Nej

5. Diskussion

Denna rapport har redovisat vilka värdeattribut som är relevanta och accepterade för ekonomiska utvärderingar av kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar. För att få med det som kan räknas som relevanta värdeattribut är det centralt med ett brett samhälls-ekonomiskt perspektiv som bland annat inkluderar effekter på närstående och produktionsbortfall, ett långsiktigt perspektiv som tar hänsyn till den preventiva effekten av bättre skolresultat samt ett mått på livskvalitet som tillåter inkludering av aspekter som självständighet, delaktighet och självkänsla.

Det saknas en acceptans hos samtliga myndigheter för värdeattribut som produktionsbortfall, effekter för närstående och icke hälsorelaterad livskvalitet. Det råder dock en diskrepans i förhållningssätt mellan olika myndigheter. Produktionsbortfall accepteras inte av TLV men tillämpas fortfarande av Socialstyrelsen och Folkhälsomyndigheten. SBU tar inte hänsyn till effekter för närstående men TLV överväger att inkludera detta och både TLV:s motsvarighet i England, NICE, och ”Second Panel” rekommenderar att detta inkluderas i hälsoekonomisk utvärdering. Medan TLV fokuserar på hälsorelaterad livskvalitet betonar SBU behovet av att inkludera ytterligare aspekter som aktivitet och delaktighet. Inom området för socialtjänst accepterar NICE (TLV:s motsvarighet i England) icke-hälsorelaterad livskvalitet eftersom dessa åtgärder har ett delvis annat syfte (46).

Denna studie visar också på ett stort behov av forskning inom området kring kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar. Det finns endast några få studier som gjort försök att ekonomiskt utvärdera kognitiva hjälpmedel och de baseras i flera fall på underlag med låg evidens. Nya studier som kan belägga kausalitet vore värdefulla, till exempel studier med randomiserade grupper eller matchad kontrollgrupp. Enkätstudier vore också av värde för att fånga utfall som saknas i register såsom informell omsorg och livskvalitet. För att fånga effekten på livskvalitet i en sådan studie bör flera olika instrument användas för att mäta livskvalitet med syfte att undersöka vilket som på bästa sätt fångar de viktigaste effekterna av kognitiva hjälpmedel. Ett alternativ är att inkludera både EQ-5D och KIDSCREEN-10. KIDSCREEN-10 innehåller frågor som relaterar till de aspekter av livskvalitet som är centrala inom detta område såsom självuppfattning, självständighet, relation till föräldrar och förmåga att prestera i skola. Det kan även översättas till en preferensbaserad livskvalitetsvikt via CHU-9D och tillåter därför skattning av ett QALY. Ett annat alternativ är att undersöka betalningsviljan för kognitiva hjälpmedel med ”discrete choice experiment”. En fördel med detta upplägg är att det går att skraddarsy instrumentet och undersöka preferenser för specifika egenskaper så att resultatet kan användas för att värdera olika typer av existerande och framtida hjälpmedel. En sådan undersökning tillåter även värdering av så kallad processrelaterad livskvalitet, det vill säga livskvalitet kopplad till hur behandlingen ges (t ex hur lätt det är att ta med sig hjälpmedlet, hur lätt det är att använda).

Inom området för effekter på lång sikt pågår en hel del forskning, bland annat finns det nu en beräkningsmodell för sociala investeringar framtagen av Uppsala universitet och Skandia. Möjligen kan detta användas som hjälp för en eventuell skattning av effekterna på sikt. En annan möjlighet är att göra en anpassad modellering av de långsiktiga effekterna, men förutsätter först ett intermediärt mått (till exempel gymnasiebehörighet) med kausal koppling till det kognitiva hjälpmedlet.

Kognitiva hjälpmedel för ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar är ett exempel på område där behovet av ett brett samhällsperspektiv blir tydligt. För att få en effektiv resursallokering på sikt är det av vikt att inkludera effekter för alla relevanta aktörer. I annat fall finns en risk att denna typ av åtgärder inte betraktas som lönsamma och prioriteras ned vilket kan leda till stora kostnader för både individ och samhälle på sikt, till exempel i form av högre arbetslöshet och större sociala problem. Det finns också en risk att innovationstakten inom området avtar eftersom lansering av en produkt inom området inte kan tillgodogöra sig det värde som det medför. För att kunna belägga värdet av kognitiva hjälpmedel finns ett stort behov av nya studier som samlar in data kring omsorgsbehov och livskvalitet samt evidensbaserad modellering av effekter på sikt.

Kognitiva hjälpmedel är en åtgärd som befinner sig i gränslandet mellan medicinsk och social åtgärd. De klassas i flera fall som medicinteknologiska produkter men är samtidigt en åtgärd som främst syftar till att kompensera för en funktionsnedsättning och på så sätt bidra till att ungdomen blir mer självständig och delaktig. På detta sätt påminner det till stor del om en social investering och denna typ av hjälpmedel har i rapporter från Hjälpmedelsinstitutet och Myndigheten för delaktighet betraktats som en social investering vars värde till stor del består i att de kan bidra till ett bättre utfall i skolan vilket på sikt kan ge högre sysselsättning och mindre sociala problem. Detta synsätt har fått en viss förankring inom region och kommuner, varav vissa avsätter medel för sociala investeringsfonder med tanken att på sikt kunna minska kostnader för till exempel ekonomiskt bistånd och socialtjänst. Det kan därför uppstå en viss målkonflikt inom området för kognitiva hjälpmedel då ett viktigt utfall av dessa är att bidra till mindre produktionsbortfall på sikt samtidigt som detta utfall bortses från av etiska skäl i de hälsoekonomiska utvärderingar som tas fram av TLV.

Som en produkt i gränsområdet mellan medicinteknik och social insats utgör kognitiva hjälpmedel en intressant produktgrupp som sätter strålkastarljuset på en diskrepans i synsättet på värde inom olika myndigheter och organisationer. Inom området för sociala insatser för barn och ungdomar har tanken på åtgärden som en investering slagit rot och det är idag brett accepterat bland kommuner och regioner och tillåter att åtgärder som leder till intäkter först på lång sikt framförallt i form av ökad arbetsförmåga och mindre behov av försörjningsstöd kan implementeras. Inom det medicinska området finns inte samma tanke på åtgärden som en investering och istället är det de etiska riktlinjerna som sätter gränser för att ta hänsyn till vinster i form av ökad arbetsförmåga.

Att inte ta hänsyn till produktionsbortfall har problematiserats av Riksrevisionen (47) eftersom det strider mot vad som normalt betraktas som ett samhällsekonomiskt perspektiv, vilket TLV fortsätter att ansluta sig till i sina riktlinjer för hälsoekonomiska utvärderingar (15). I en rapport tar TLV också själva upp att lagstiftarens intention med det samhällsekonomiska perspektivet var att produktionsbortfallet skulle beaktas eftersom det för många sjukdomar och tillstånd utgör en stor del av den totala sjukdomsburden (16).

Antalet kognitiva hjälpmedel för barn och ungdomar med kognitiva funktionsnedsättningar kan komma att öka i framtiden i takt med den teknologiska utvecklingen. Samtidigt ska beslut om vilka medicinteknologiska produkter som ska subventioneras beslutas på nationell nivå med utgångspunkt i en ekonomisk utvärdering som möjligen bygger på liknande modell som idag används inom läkemedelsområdet. Detta kan medföra att medicinteknologiska produkter som skulle kunna skapa stor samhällsekonomisk lönsamhet på sikt inte rekommenderas eftersom deras huvudsakliga värde inte beaktas. Detta kan i sin tur påverka viljan att investera i denna typ av teknologi och viljan att lansera denna typ av produkter i Sverige. Här finns frågetecken som kan behöva redas ut för att förena principer för prioritering inom olika myndighetsområden.

Referenser

1. Gillespie A, Best C, O'Neill B. Cognitive function and assistive technology for cognition: a systematic review. *J Int Neuropsychol Soc.* 2012;18(1):1-19.
2. Janeslätt G. Time for time - Assessment of time processing ability and daily time management in children with and without disabilities Dissertation Department of Neurobiology, Care Science and Society, Division of Occupational Therapy, Karolinska Institutet, Stockholm, Sweden 2009.
3. Wennberg B. Keeping track of time - Daily time management, participation, and time-related interventions for children, adolescents, and young adults with neurodevelopment disorders Linköping University Medical Dissertations 2019(1717).
4. Lakdawalla DN, Doshi JA, Garrison LP, Jr., Phelps CE, Basu A, Danzon PM. Defining Elements of Value in Health Care-A Health Economics Approach: An ISPOR Special Task Force Report [3]. *Value Health.* 2018;21(2):131-9.
5. Doshi JA, Hodgkins P, Kahle J, Sikirica V, Cangelosi MJ, Setyawan J, et al. Economic impact of childhood and adult attention-deficit/hyperactivity disorder in the United States. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry.* 2012;51(10):990-1002.e2.
6. Le HH, Hodgkins P, Postma MJ, Kahle J, Sikirica V, Setyawan J, et al. Economic impact of childhood/adolescent ADHD in a European setting: the Netherlands as a reference case. *Eur Child Adolesc Psychiatry.* 2014;23(7):587-98.
7. Buescher AV, Cidav Z, Knapp M, Mandell DS. Costs of autism spectrum disorders in the United Kingdom and the United States. *JAMA Pediatr.* 2014;168(8):721-8.
8. Dahlberg Å. Hjälpmedel lönsamma - kostnadsnyttobedömning av hjälpmedel till personer med psykisk funktionsnedsättning Hjälpmedelsinstitutet (HI) 2010
9. Khanna R, Jariwala K, Bentley JP. Psychometric properties of the EuroQol Five Dimensional Questionnaire (EQ-5D-3L) in caregivers of autistic children. *Qual Life Res.* 2013;22(10):2909-20.
10. Brown CC, Tilford JM, Payakachat N, Williams DK, Kuhlthau KA, Pyne JM, et al. Measuring Health Spillover Effects in Caregivers of Children with Autism Spectrum Disorder: A Comparison of the EQ-5D-3L and SF-6D. *Pharmacoeconomics.* 2019;37(4):609-20.
11. Lavelle TA, Weinstein MC, Newhouse JP, Munir K, Kuhlthau KA, Prosser LA. Parent Preferences for Health Outcomes Associated with Autism Spectrum Disorders. *Pharmacoeconomics.* 2019;37(4):541-51.
12. Lee D, Kim Y, Devine B. Spillover Effects of Mental Health Disorders on Family Members' Health-Related Quality of Life: Evidence from a US Sample. *Med Decis Making.* 2021:272989x211027146.
13. Peasgood T, Bhardwaj A, Brazier JE, Biggs K, Coghill D, Daley D, et al. What Is the Health and Well-Being Burden for Parents Living With a Child With ADHD in the United Kingdom? *J Atten Disord.* 2021;25(14):1962-76.
14. Ten Hoopen LW, de Nijs PFA, Duvekot J, Greaves-Lord K, Hillegers MHJ, Brouwer WBF, et al. Children with an Autism Spectrum Disorder and Their Caregivers: Capturing Health-Related and Care-Related Quality of Life. *J Autism Dev Disord.* 2020;50(1):263-77.

15. TLV. Ändring i Tandvårds- och läkemedelsförmånsverkets allmänna råd (TLVAR 2003:2) om ekonomiska utvärderingar, TLVAR 2017:1 2017 [cited 2020 28 december]. Available from: https://www.tlv.se/download/18.467926b615d084471ac3230c/1510316374332/TLVAR_2017_1.pdf.
16. TLV. Hur ska vi utvärdera och hur ska vi betala? Hälsoekonomiska bedömningar och betalningsmodeller för precisionsmedicin och ATMP 2021 [cited 2021 May 4]. Available from: https://www.tlv.se/download/18.6dab39ff179179457163974e/1619976307258/Rapport_atmp_20210430.pdf.
17. Folkhälsomyndigheten. Hälsoekonomisk analys av TBE-vaccination i Stockholms läns landsting (SLL), Framtagen på uppdrag av SLL. 2018 [cited 2022 28 april]. Available from: <https://www.folkhalsomyndigheten.se/contentassets/9e5836078931460fb4b719df4535ee43/halsoekonomisk-analys-tbe-18125.pdf>.
18. Socialstyrelsen. Nationella riktlinjer för vård vid psoriasis - Hälsoekonomiskt underlag, Bilaga. 2019 [cited 2022 28 april]. Available from: <https://www.socialstyrelsen.se/globalassets/sharepoint-dokument/artikelkatalog/nationella-riktlinjer/2019-3-11-nr-psoriasis-halsoekonomiskt-underlag.pdf>.
19. Sanders GD, Neumann PJ, Basu A, Brock DW, Feeny D, Krahn M, et al. Recommendations for Conduct, Methodological Practices, and Reporting of Cost-effectiveness Analyses: Second Panel on Cost-Effectiveness in Health and Medicine. JAMA. 2016;316(10):1093-103.
20. Hultkrantz L. Att utvärdera sociala investeringar SNS Förlag 2015
21. Nilsson I, Nilsson Lundmark E, Wadeskog A. Unga, skolmisslyckande och arbetsmarknad - socioekonomisk analys inom projektet Vägar till arbete Myndigheten för delaktighet Artikelnummer: 14313 2014.
22. Folkhälsomyndigheten. Föräldrastöd – är det värt pengarna? Hälsoekonomiska analyser av föräldrastödsprogram [cited 2021 16 december]. Available from: <https://www.folkhalsomyndigheten.se/contentassets/96c8eeff924946d880ce04d30c520bb7/foraldrastod-en-lonsam-satsning-halsoekonomiska-analyser-folkhalsomyndigheten.pdf>.
23. Nystrand C. The value of social investments - A health economic approach to evaluating parenting interventions. 2020 [cited 2021 16 december]. Available from: <https://www.diva-portal.org/smash/get/diva2:1502842/FULLTEXT01.pdf>.
24. Sarkandi A, Feldman I, Voon M. Sociala investeringar lönar sig - en satsad krona ger fem tillbaka på 15 års sikt [cited 2021 16 december]. Available from: <https://www.ideerforlivet.se/globalassets/pdf/rapporter/seminariedokumentation-effektmodellen-150629.pdf>.
25. universitet U. Beräkningsverktyg för sociala investeringar. 2021 [cited 2021 16 december]. Available from: <https://www.pubcare.uu.se/forskning/chap/projekt/aktuella-projekt/berakningsverktyg-for-sociala-investeringar/>.
26. Balkfors A, Bokström T, Salonen T. Med framtiden för sig - en ESO-rapport om sociala investeringar Raaport till Expertgruppen för studier i offentlig ekonomi 2020:1, Statens offentliga utredningar 2020.

27. Able SL, Haynes V, Hong J. Diagnosis, treatment, and burden of illness among adults with attention-deficit/hyperactivity disorder in Europe. *Pragmat Obs Res.* 2014;5:21-33.
28. Gjervan B, Hjemdal O, Nordahl HM. Functional Impairment Mediates the Relationship Between Adult ADHD Inattentiveness and Occupational Outcome. *J Atten Disord.* 2016;20(6):510-8.
29. Domellöf E, Hedlund L, Ödman P. Health-related quality of life of children and adolescents with functional disabilities in a northern Swedish county. *Qual Life Res.* 2014;23(6):1877-82.
30. Kerr C, Breheny K, Lloyd A, Brazier J, Bailey DB, Jr., Berry-Kravis E, et al. Developing a utility index for the Aberrant Behavior Checklist (ABC-C) for fragile X syndrome. *Qual Life Res.* 2015;24(2):305-14.
31. Bouwmans C, van der Kolk A, Oppe M, Schawo S, Stolk E, van Agthoven M, et al. Validity and responsiveness of the EQ-5D and the KIDSCREEN-10 in children with ADHD. *Eur J Health Econ.* 2014;15(9):967-77.
32. Chen G, Stevens K, Rowen D, Ratcliffe J. From KIDSCREEN-10 to CHU9D: creating a unique mapping algorithm for application in economic evaluation. *Health Qual Life Outcomes.* 2014;12:134.
33. Matza LS, Boye KS, Feeny DH, Johnston JA, Bowman L, Jordan JB. Impact of caregiver and parenting status on time trade-off and standard gamble utility scores for health state descriptions. *Health Qual Life Outcomes.* 2014;12:48.
34. Matza LS, Devine MK, Haynes VS, Davies EW, Kostelec JM, Televantou F, et al. Health state utilities associated with adult attention-deficit/hyperactivity disorder. *Patient Prefer Adherence.* 2014;8:997-1006.
35. Ophuis RH, Janssen MF, Bonsel GJ, Panneman MJ, Polinder S, Haagsma JA. Health-related quality of life in injury patients: the added value of extending the EQ-5D-3L with a cognitive dimension. *Qual Life Res.* 2019;28(7):1941-9.
36. Russell AM, O'Dwyer JL, Bryant LD, House AO, Birtwistle JC, Meer S, et al. The feasibility of using the EQ-5D-3L with adults with mild to moderate learning disabilities within a randomized control trial: a qualitative evaluation. *Pilot Feasibility Stud.* 2018;4:164.
37. Glenngård AH, Hjelmgren J, Thomsen PH, Tvedten T. Patient preferences and willingness-to-pay for ADHD treatment with stimulants using discrete choice experiment (DCE) in Sweden, Denmark and Norway. *Nord J Psychiatry.* 2013;67(5):351-9.
38. Gjervan B, Torgersen T, Rasmussen K, Nordahl HM. ADHD symptoms are differentially related to specific aspects of quality of life. *J Atten Disord.* 2014;18(7):598-606.
39. Peasgood T, Bhardwaj A, Biggs K, Brazier JE, Coghill D, Cooper CL, et al. The impact of ADHD on the health and well-being of ADHD children and their siblings. *Eur Child Adolesc Psychiatry.* 2016;25(11):1217-31.
40. Ahnemark E, Di Schiena M, Fredman AC, Medin E, Söderling JK, Ginsberg Y. Health-related quality of life and burden of illness in adults with newly diagnosed attention-deficit/hyperactivity disorder in Sweden. *BMC Psychiatry.* 2018;18(1):223.
41. Joseph A, Kosmas CE, Patel C, Doll H, Asherson P. Health-Related Quality of Life and Work Productivity of Adults With ADHD: A U.K. Web-Based Cross-Sectional Survey. *J Atten Disord.* 2019;23(13):1610-23.

42. Micoulaud-Franchi JA, Weibel S, Weiss M, Gachet M, Guichard K, Bioulac S, et al. Validation of the French Version of the Weiss Functional Impairment Rating Scale-Self-Report in a Large Cohort of Adult Patients With ADHD. *J Atten Disord*. 2019;23(10):1148-59.
43. Pawaskar M, Fridman M, Grebla R, Madhoo M. Comparison of Quality of Life, Productivity, Functioning and Self-Esteem in Adults Diagnosed With ADHD and With Symptomatic ADHD. *J Atten Disord*. 2020;24(1):136-44.
44. TLV. Kammarrättens dom om Vagifem står fast. 2017 [cited 2022 2 februari]. Available from: <https://www.tlv.se/beslut/beslut-lakemedel/overklagade-beslut/avslutade/arkiv/2017-02-24-kammarrattens-dom-om-vagifem-star-fast.html>.
45. TLV. Handbok till Tandvårds- och läkemedelsförmånsverkets föreskrifter (TLVFS 2011:3) om ansökan om pris och subvention för förbrukningsartiklar. Tandvårds- och läkemedelsförmånsverket Beslutad 2011-09-06 Version 10. 2011.
46. NICE. Economic evaluation - Reference case 2021 [cited 2021 16 december]. Available from: <https://www.nice.org.uk/process/pmg20/chapter/incorporating-economic-evaluation#the-reference-case>.
47. Riksrevisionen. Mesta möjliga hälsa för skattepengarna - statens subventionering av läkemedel 2021 [cited 2021 18 maj]. Available from: https://www.riksrevisionen.se/download/18.269b989517934ecd275a919/1620119135179/RiR%202021_14%20Anpassad.pdf.

Institutet för Hälso- och Sjukvårdsekonomi (IHE) grundades 1979, och är därmed det äldsta hälsoekonomiska forskningscentret i Sverige. Som ett oberoende forskningsinstitut med rötterna i hälsoekonomi arbetar vi med uppdragsgivare från alla samhällssektorer för att generera evidens för ett sunt beslutsfattande. Våra uppdragsgivare finns såväl i Sverige som internationellt.

IHE är specialiserat på tillämpad policyanalys och hälsoekonomiska studier, baserat på kunskap från framkanten av internationell utveckling samt oberoende intern metodutveckling. Arbetet var tidigt inriktat på att utveckla metoder för hälsoekonomiska utvärderingar och att genomföra analyser av behandlingsalternativ för att stödja beslutsfattande inom hälso- och sjukvården.

IHE är en av Nordens största och mest erfarna hälsoekonomiska forskargrupper. Vår personal består av erfarna akademiska hälsoekonomer och högkvalificerade tvärvetenskapliga specialister inom hälsoekonomi, medicinsk vetenskap, statistik och företagsekonomi.

Utöver våra projektuppdrag arrangerar IHE också årligen IHE Forum, en policyinriktad, tvådagarskonferens där hälso- och sjukvårdens aktörer möts och diskuterar aktuella ämnen. Vi håller också öppna och skräddarsydda kurser inom hälsoekonomi, samt organiserar ett nätverk för svenska hälsoekonomer med årliga möten sedan 2002.



Informerat beslutsfattande för hälsa och välfärd

Institutet för Hälso- och Sjukvårdsekonomi
The Swedish Institute for Health Economics
www.ihe.se